

## Case report

### Myxœdème des voies aérodigestives supérieures associée à une embolie pulmonaire létale



#### *Myxedema of upper airway associated with lethal pulmonary thromboembolism*

**Youssef Lakhdar<sup>1,&</sup>, Mohamed Elbouderkaoui<sup>1</sup>, Mohamed Mehdi El Fakiri<sup>1</sup>, Youssef Rochdi<sup>1</sup>, Hassan Nouri<sup>1</sup>, Abdelaziz Raji<sup>1</sup>**

<sup>1</sup>Service d'ORL et de Chirurgie Cervico-Faciale, Centre Hospitalier Universitaire Mohammed VI, Marrakech, Maroc

<sup>&</sup>Auteur correspondant: Youssef Lakhdar, Service d'ORL et de Chirurgie Cervico-Faciale, Centre Hospitalier Universitaire Mohammed VI, Marrakech, Maroc

Received: 03 Nov 2019 - Accepted: 12 Nov 2019 - Published: 30 Nov 2019

Domain: Endocrinology, Urgent Care Medicine, Otolaryngology (ENT)

Mots clés: Myxœdème, hypothyroïdie, dyspnée laryngée

#### Résumé

L'hypothyroïdie sévère est une cause rare de myxœdème des voies aéro-digestives supérieures. C'est une urgence nécessitant une prise en charge multidisciplinaire. L'objectif de cette étude était de présenter les difficultés du diagnostic et de la prise en charge du myxœdème des voies aériennes supérieures. Un homme âgé de 60 ans, diabétique type II, avait présenté un mois avant son admission une infiltration de la région cervicale associée à une dysphonie, qui s'est compliquée d'une dyspnée inspiratoire persistante. L'examen clinique à l'admission a révélé une infiltration cervicale et un œdème de l'étage sus-glottique du larynx, qui réduisait la filière respiratoire. Cet aspect a été confirmé à la tomodensitométrie cervicale et une trachéotomie en urgence a été réalisée. Un complément de bilan a montré un épanchement pleuro-péricardique de moyenne abondance. Un dosage de la « thyroid stimulating hormone » (TSH) et de la thyroxine (T4) a confirmé le diagnostic de myxœdème des voies aéro-digestives supérieures sur hypothyroïdie. Le patient était mis sous corticoïde injectable et la levothyroxine orale à dose progressivement croissante. L'évolution était marquée par une amélioration partielle. Cependant, l'apparition d'une embolie pulmonaire a causé le décès du patient. Le myxœdème des voies aéro-digestives supérieures semble une cause exceptionnelle de dyspnée laryngée évoquée même en absence de goitre. Son diagnostic est à la fois endoscopique, radiologique et biologique et sa prise en charge est médico-chirurgicale.

**Case report | Volume 1, Article 34, 30 Nov 2019 | 10.11604/pamj-cm.2019.1.34.20882**

Available online at: <https://www.clinical-medicine.panafrican-med-journal.com/content/article/1/34/full>

© Youssef Lakhdar et al PAMJ - Clinical Medicine (ISSN: 2707-2797). This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution International 4.0 License (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.



## Abstract

*Severe hypothyroidism is a rare cause of myxedema of the upper aerodigestive tract. It is an emergency requiring multidisciplinary care. The objectives of this study was to present the difficulties of diagnosis and management of myxedema of the upper airways. A 60-year-old man with type II diabetes presented a cervical infiltration associated with dysphonia one month before admission, which was complicated by persistent inspiratory dyspnea. Clinical examination at admission revealed cervical infiltration and edema of the supra-glottic stage of the larynx, which reduced the respiratory tract. This aspect was confirmed in cervical CT scan and emergency tracheotomy was performed. A thoracic CT scan showed a pleuro-pericardial effusion of average abundance. An assay of the thyroid stimulating hormone (TSH) and thyroxine (T4L) confirmed the diagnosis of myxedema of the upper aero-digestive tract on hypothyroidism. The patient was on injectable corticosteroid and oral levothyroxine in a gradually increasing dose. The evolution was marked by a partial improvement. However, the occurrence of pulmonary embolism caused the death of the patient. Myxedema of the upper aero-digestive tract seems to be an exceptional cause of laryngeal dyspnea, even in the absence of goiter, its diagnosis is endoscopic, radiological and biological and its management is medico-surgical.*

**Key words:** Myxedema, hypothyroidism, laryngeal dyspnea

## Introduction

---

L'hypothyroïdie sévère est une affection rare qui peut se compliquer de myxoœdème. La localisation du myxoœdème au niveau des voies aérodigestives supérieures est une urgence nécessitant une prise en charge multidisciplinaire. L'objectif de cette observation est de présenter un cas de myxoœdème des voies aériennes supérieures qui s'est associé à une embolie pulmonaire létale avec ses particularités diagnostiques et la prise en charge entreprise.

## Patient et observation

---

Il s'agissait d'un patient de 60 ans qui avait uniquement comme antécédent connu un diabète type II sous insuline. Il avait présenté un mois avant une infiltration de la région cervicale associée à une dysphonie. Cette symptomatologie s'est compliquée d'une dyspnée inspiratoire persistante avec ronflement nocturne quatre jours avant son admission aux urgences de notre structure hospitalière. À son admission, le patient était conscient, apyrétique avec un indice de masse corporelle de 40kg/m<sup>2</sup>. Son pouls était régulier avec une

fréquence de 92 battements par minutes et sa tension artérielle était à 105/60 mm Hg. La région cervico-faciale était le siège d'une infiltration sous-cutanée non fluctuante sans signe inflammatoire en regard sans œdème des membres inférieures. La langue et l'oropharynx étaient œdématiées. L'endoscopie souple des voies aérodigestives supérieures a objectivé un œdème diffus de tout le pharynx étendu à l'étage sus-glottique du larynx qui empêchait la visualisation de la glotte (Figure 1). La tomodensitométrie (TDM) cervico-faciale a montré une infiltration de la graisse cervicale sans collection décelable ainsi qu'un infiltrat de la paroi pharyngo-laryngée responsable d'une importante réduction de la lumière pharyngo-laryngée (Figure 2). Devant l'importance de la détresse respiratoire, une trachéotomie en urgence a été réalisée. Un bilan complémentaire a été réalisé: la protéine C-réactive était à 17 mg/ml avec des leucocytes à 5000/mm<sup>3</sup>, la vitesse de sédimentation était à 5mm à la 1ère heure. Une TDM thoracique a objectivé un épanchement pleural bilatéral associé à une lame d'épanchement péricardique (Figure 3). Cet épanchement a été confirmé par le complément échographie trans-thoracique.

Le dosage de « thyroid stimulating hormone » ultrasensible (TSHus) était de 29 pmol/L avec un taux de L-thyroxine libre (FT4) de 0,3 pmol/L. Le bilan de maladie de système était négatif (notamment la recherche des anticorps anti-nucléaires et le dosage des compléments du C1inh et du CH50). Le diagnostic de myxœdème secondaire à une hypothyroïdie a été retenu. Aucune cytoponction ou biopsie thyroïdienne n'a été réalisée. Le patient a reçu une corticothérapie intraveineuse à base de dexaméthasone à la dose de 10mg toute les 8 heures avec adaptation des doses d'insulinothérapie sous shamas basale-bolus. La levothyroxine a été administrée par voie orale à dose initiale de 50µg/j puis augmentation des doses par palier de 12,5 µg/semaine. Une anticoagulation préventive à base d'héparine non fractionnée été aussi démarrée vu que le patient été grabataire. L'évolution a été marqué d'une diminution progressive de l'œdème cervicale. Cependant, au 16ème jour d'hospitalisation, le patient a présenté une dyspnée aigue associée à des douleurs thoraciques. La TDM thoraciques et la scintigraphie pulmonaire ont révélé une embolie pulmonaire bilatérale des deux branches de l'artère pulmonaire (Figure 1). Le malade a été mis sous anticoagulant par héparine non fractionnée et transféré en réanimation médicale. L'aggravation de son état respiratoire a nécessité une ventilation mécanique et un drainage continu de l'épanchement pleural et de l'épanchement péricardique. La supplémentation en hormone thyroïdienne a été réalisée par sonde nasogastrique. Le malade n'a pas présenté d'amélioration et est décédé après sept jours. Aucune autopsie n'a été réalisée.

## Discussion

---

L'hypothyroïdie est caractérisée pour son installation insidieuse et ses présentations cliniques peu spécifiques. Elle survient dans le cadre d'une thyroïdite ou après chirurgie thyroïdienne [1]. Ce qui n'est pas le cas de notre patient. Seul

0,3% des hypothyroïdies présentent une symptomatologie clinique. Les manifestations cliniques de l'hypothyroïdie sont l'asthénie, l'hypothermie, la chute de cheveux, la perte d'appétit, la constipation, l'œdème ne prenant pas le godet des extrémités et du visage [2]. Dans ses formes sévères, elle peut être source de complications respiratoires, cardiovasculaires ou neurologiques [3]. L'insuffisance respiratoire de l'hypothyroïdie profonde est la conséquence de plusieurs facteurs: il s'agit de facteurs centraux par la mauvaise réponse cérébrale à l'hypercapnie et à l'hypoxie qui entraînent une hypoventilation. Il s'agit également de facteurs mécaniques par la faiblesse musculaire respiratoire due à la myopathie de l'hypothyroïdie, la présence d'épanchements pleuraux ou d'ascite, l'obésité, la macroglossie, l'apnée du sommeil et le myxœdème du larynx [2,4]. Le myxœdème est dû au dépôt de mucopolysaccharides dans le tissu interstitiel. Au niveau du larynx, cela entraîne une dysphonie et peut participer à une détresse respiratoire par obstruction des voies aériennes supérieures à un stade avancé. Au stade clinique, la symptomatologie de notre patient faisait plutôt évoquer en première intention une cause infectieuse ou allergique. Le diagnostic positif du myxœdème des voies aériennes supérieures est réalisé par l'endoscopie du larynx, la tomodensitométrie cervicale et le bilan biologique. L'endoscopie montre l'œdème des voies aériennes supérieures. La tomodensitométrie en coupe axiale montre un rétrécissement des voies aériennes du au myxœdème [3]. Le diagnostic biologique en première intention de l'hypothyroïdie se fait par une augmentation du taux de TSH (valeurs normales = 0,27 à 4,2 pmol/L). En seconde intention, un dosage de T4 libre montre un taux abaissé (valeurs normales = 12 à 22 pmol/L). La prise en charge du myxœdème des voies aériennes supérieures débute par la levée de l'obstacle des voies aériennes supérieures par une intubation voir une trachéotomie en urgence. Le maintien de cette trachéotomie était requis jusqu'à la résorption progressive du myxœdème, soit un délai minimum de deux semaines [5] L'utilisation de glucocorticoïdes est une pratique standardisé

dans le traitement du myxoœdème et devrait être poursuivi particulièrement si l'insuffisance surrénale est documentée [5,6]. Une gestion appropriée de l'insuffisance sous-jacente des hormones thyroïdiennes est essentielle et tous les patients doivent recevoir un supplément d'hormone thyroïdienne. Chez notre patient, la levothyroxine a été administrée par voie orale à faible dose puis une augmentation progressive des doses vu le risque cardiaque. Certains auteurs considèrent que si une hypothyroïdie profonde a entraîné un myxoœdème du larynx, le myxoœdème intestinal y est probablement associé. Ce qui gênerait l'absorption intestinale. La supplémentation en hormones thyroïdiennes devrait se faire idéalement par voie intraveineuse à base de lévothyroxine dans l'hypothyroïdie sévère [1,6]. Cependant, cette administration est controversée [1,5]. L'hypothyroïdie est connue pour induire des troubles de la coagulation. Cependant, même si l'association de l'hypothyroïdie et de l'embolie pulmonaire a été rapportée dans la littérature, sa corrélation est toujours au stade de controverse [7-9].

## Conclusion

---

Le myxoœdème des voies aériennes supérieures est une complication rare de l'hypothyroïdie. Son diagnostic fait appel à l'endoscopie, l'imagerie et le dosage de la TSH. Son diagnostic et sa prise en charge est médico-chirurgicale et doivent être précoces afin de prévenir le décès du patient.

## Conflits d'intérêts

---

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

## Contributions des auteurs

---

Youssef Lakhdar, l'auteur correspondant, a diagnostiqué le patient. Youssef Lakhdar, Mohamed Mehdi El Fakiri, Youssef Rochdi et Abdelaziz Raji, ont traité le patient. Youssef Lakhdar a obtenu le consentement de la famille. Youssef Lakhdar a écrit la majorité du manuscrit et l'iconographie. Mohamed Mehdi El Fakiri et Mohamed Elbouderkou ont contribué à la rédaction du cas clinique et à l'iconographie. Abdelaziz Raji et Hassan Nouri ont revu de manière critique le manuscrit. Tous les auteurs ont lu et approuvé la version finale du manuscrit.

## Figures

---

**Figure 1:** vue endoscopique du larynx qui montre un œdème l'étage sus glottique, de l'épiglotte et des aryténoïdes

**Figure 2:** scanner cervicale en coupe axiale qui montre une infiltration œdémateuse obstruant la filière laryngée

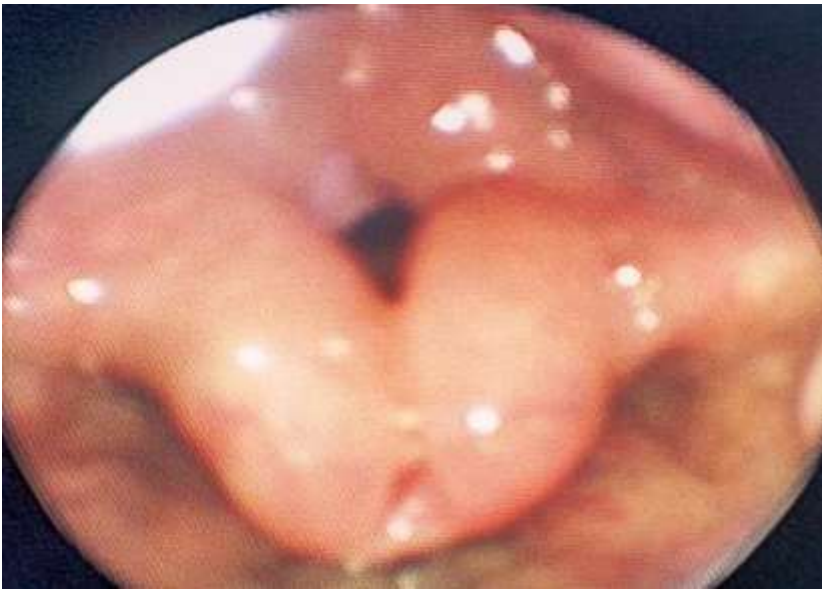
**Figure 3:** scanner cervico-thoracique en coupe coronale qui montre l'infiltration des parties molles cervicale avec un épanchement pleuro-péricardique et une embolie pulmonaire bilatérale

## Références

---

1. Batniji RK, Butehorn HF 3<sup>rd</sup>, Cevera JJ, Gavin JP, Seymour PE, Parnes SM. Supraglottic myxedema presenting as acute upper airway obstruction. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2006 Feb;134(2):348-50. [PubMed](#) | [Google Scholar](#)
2. Benfari G, De Vincentiis M. Postoperative airway obstruction: a complication of a previously undiagnosed hypothyroidism. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005 Feb;132(2):343-4. [PubMed](#) | [Google Scholar](#)

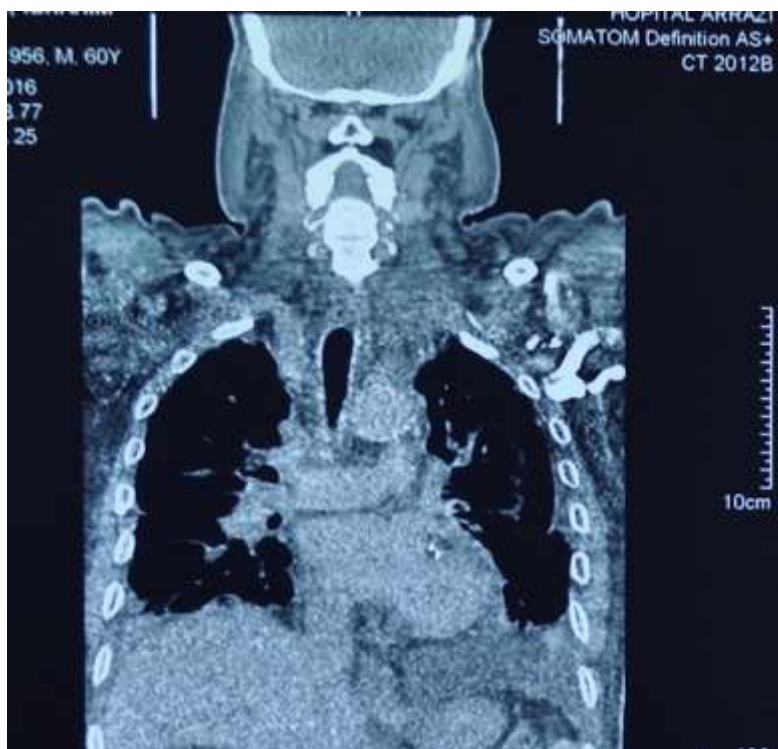
3. Vijay Bidkar, Ashok Naik, Roshan J, Anita BS. Myxoedema of Upper Airway: A Rare Cause of Stridor. *Journal of case reports*. 2013;3(2):249-253. **Google Scholar**
4. Wartofsky L. Myxedema Coma. *Endocrinol Metab Clin N Am*. 2006 Dec;35(4):687-98. **PubMed | Google Scholar**
5. Silvia R, Salgado Nunez Del Prado, Rachel A Steinman, Kashif M Munir, Elizabeth M Lamos. Supraglottic myxedema: two cases and a review of the literature. *AACE clinical case reports*. 2017; 3(2): 101-105. **Google Scholar**
6. Ladsous M. Hypothyroidie de l'adulte. EMC 2010.
7. Sorin Hostiuc, Corneliu Octavian Capatina, Crina Julieta Sinescu, Mihaela Hostiuc. Lethal pulmonary thromboembolism associated with decreased thyroid hormone levels. *Arch Endocrinol Metab*. 2015;59(4):355-8. **PubMed | Google Scholar**
8. Hostiuc M, Curca GC, Dermengiu D, Sinescu C, Hostiuc S. Can subclinical hypothyroidism explain some sudden deaths due to pulmonary embolism without evident risk factors. *Medical Hypotheses*. 2011 Jun;76(6):855-7. **PubMed | Google Scholar**
9. Liviu G Danescu, Aaref Badshah, Septimiu C Danescu, Muhammad Janjua, Anna M Marandici, Fadi Matta *et al*. Venous Thromboembolism in Patients Hospitalized With Thyroid Dysfunction. *Clinical and Applied Thrombosis/Hemostasis*. 2009;15:676-680. **Google Scholar**



**Figure 1:** vue endoscopique du larynx qui montre un œdème l'étage sus-glottique, de l'épiglotte et des aryténoïdes



**Figure 2:** scanner cervicale en coupe axiale qui montre une infiltration œdémateuse obstruant la filière laryngée



**Figure 3:** scanner cervico-thoracique en coupe coronale qui montre l'infiltration des parties molles cervicale avec un épanchement pleuro-péricardique et une embolie pulmonaire bilatérale