

Open Access Full Text Article

## CASE REPORT

# The plastic bronchitis: about one case

## *La bronchite plastique: à propos d'un cas clinique*

R. Taghlaoui, A. Hayoune, H. Kouismi

*Service de Pneumologie. CHU Mohammed VI d'Oujda. Oujda, Maroc*

### ABSTRACT

Plastic bronchitis (BP) or bronchial mussel disease is a rare condition that is common at any age, with a predilection in children. The diagnosis is usually obvious and relies on the appearance of solid and branched sputum. However, etiological research is not easy and does not often lead to a diagnosis.

We report the case of a 16-year-old patient with a history of recurrent respiratory infections since childhood with persistent, solid and branched chronic sputum since January 2019; the symptomatology worsened two weeks before admission by the increased cough and the appearance of a dyspnea stage 3 of Sadoul. The thorax showed a left basal opacity associated with a predominant bronchial syndrome on the left. The CT sections demonstrated dilated cystic bronchi located at basal level of LSG and apical of LIG. Bronchial fibroscopy found thick, solid, whitish-like secretions obstructing the bronchi at the PB level of LIG and culmen. Histopathological examination of fibroscopic material revealed loose fibrotic tissue with some inflammatory cells. A few days after the bronchoscopy, the patient rejected more bronchial sputum, and so the dyspnea improved. The evolution was favorable under antibiotherapy and respiratory physiotherapy. The diagnosis of BP on a localized DDB focus is retained.

The presence of solid and branched sputum should be reminiscent of bronchial mussel disease and encourage bronchoscopic fibroscopy for diagnostic and therapeutic purposes. Management must be early to avoid complications.

**KEYWORDS:** Plastic bronchitis; Bronchial mold; Bronchial fibroscopy.

### RÉSUMÉ

La bronchite plastique (BP) ou maladie des moules bronchiques est une pathologie rare, rencontrée à tout âge, avec une prédilection chez l'enfant. Le diagnostic est généralement évident et repose sur l'aspect des expectorations solides et ramifiées. Cependant, la recherche étiologique n'est pas facile et n'aboutit pas souvent à un diagnostic.

Nous rapportons le cas d'un patient de 16 ans, aux antécédents la notion d'infections respiratoires à répétition depuis l'enfance qui présente des expectorations chroniques persistantes solides et ramifiées depuis janvier 2019 ; la symptomatologie s'est aggravé deux semaines avant son admission par la majoration de la toux et l'apparition d'une dyspnée stade 3 de Sadoul. La radio thorax montrait une opacité basale gauche associée à un syndrome bronchique prédominant à gauche. Les coupes scannographiques mettaient en évidence une dilatation des bronches kystique localisée au niveau basal de LSG et apical de LIG. La fibroscopie bronchique retrouvait des sécrétions épaisses solides d'aspect blanchâtre obstruant les bronches au niveau de PB de LIG et de culmen. L'examen anatomopathologique de matériel prélevé par fibroscopie montrait un tissu fibreux lâche avec présence de quelques cellules inflammatoires. Quelques jours après la bronchoscopie, le patient a rejeté davantage des expectorations bronchiques, et ainsi la dyspnée s'est améliorée. L'évolution était favorable sous antibiothérapie et kinésithérapie respiratoire. Le diagnostic de BP sur un foyer localisé DDB est retenu.

La présence d'expectorations solides et ramifiées doit faire penser à la maladie des moules bronchiques et inciter à réaliser une fibroscopie bronchique à visée diagnostique et thérapeutique. La prise en charge doit être précoce pour éviter des complications.

**MOTS CLÉS:** Bronchite plastique; Moule bronchique; Fibroscopie bronchique.

*Corresponding author: Dr. Hatim KOUISMI. Service de Pneumologie. CHU Mohammed VI d'Oujda. Maroc  
E-mail: [hatim.kouismi@gmail.com](mailto:hatim.kouismi@gmail.com)*

## INTRODUCTION

La bronchite plastique (BP) est une affection rare, elle se caractérise par l'obstruction étendue de l'arbre bronchique par des moules bronchiques ; elle peut entraîner des détresses respiratoires parfois fatales. Elle se rencontre essentiellement au cours d'affections respiratoires chroniques ou de cardiopathies cyanogènes.

Tous les niveaux bronchiques peuvent être atteints, en particulier les lobes inférieurs. La BP atteint aussi bien l'enfant que l'adulte, mais la plupart des cas ont été rapportés chez des enfants [1]. La prévalence exacte de la BP demeure inconnue et semble sous-estimée [2].

## OBSERVATION

Nous rapportons l'observation d'un adolescent hospitalisé dans notre service de pneumologie d'Oujda durant le mois Avril 2019.

Il s'agit d'un jeune patient âgé de 16 ans ayant comme antécédents une notion de pneumopathies à répétitions depuis l'âge de 5 ans. Le patient se présentait en consultation pour prise en charge d'une toux chronique trainante associé à une douleur basithoracique gauche, la symptomatologie s'est aggravée par la majoration des expectorations et l'apparition d'une dyspnée stade 3 de Sadoul. L'examen clinique: patient conscient stable sur le plan hémodynamique, polypneïque à 24 c/min; SaO<sub>2</sub>: 94 % à l'air ambiant ; l'examen pleuropulmonaire : sans particularité. La Radiographie thoracique misait en évidence une opacité basale gauche avec un syndrome bronchique prédominant à gauche (Figure 1).

On a complété par une tomodensitométrie thoracique qui montrait un aspect de dilatation des bronches kystiques localisée au niveau basal de lobe supérieur gauche et apical de lobe inférieur gauche (Figure 2).



FIGURE 1. Radiographie thoracique réalisé chez notre patient montrant une opacité basale gauche avec syndrome bronchique

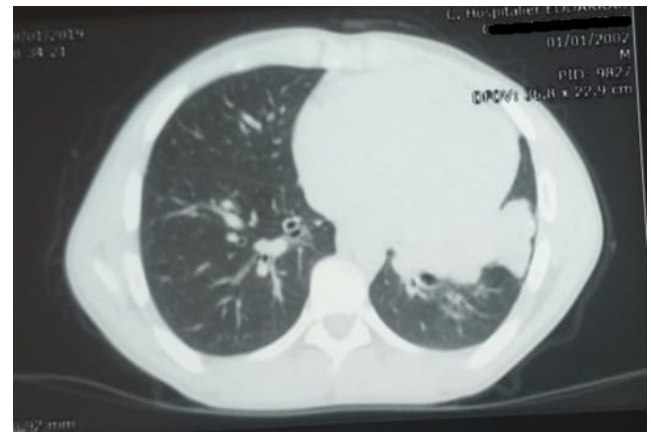


FIGURE 2. Scanner thoracique réalisé montrant un foyer de dilatation des bronches kystique au niveau basal de lobe supérieur gauche et apical de lobe inférieur gauche.

L'exploration bronchoscopique, réalisée à trois reprises, montrait au niveau de l'arbre bronchique gauche: une muqueuse d'aspect inflammatoire diffuse avec épaississement de l'éperon ILS (interlobaire supérieur) et ICL (inter-culmeno-lingulaire) avec des moules blanchâtres collantes à la paroi et obstruant la lumière bronchique au niveau de culmen et au niveau de pyramide basale gauche (Figure 3).

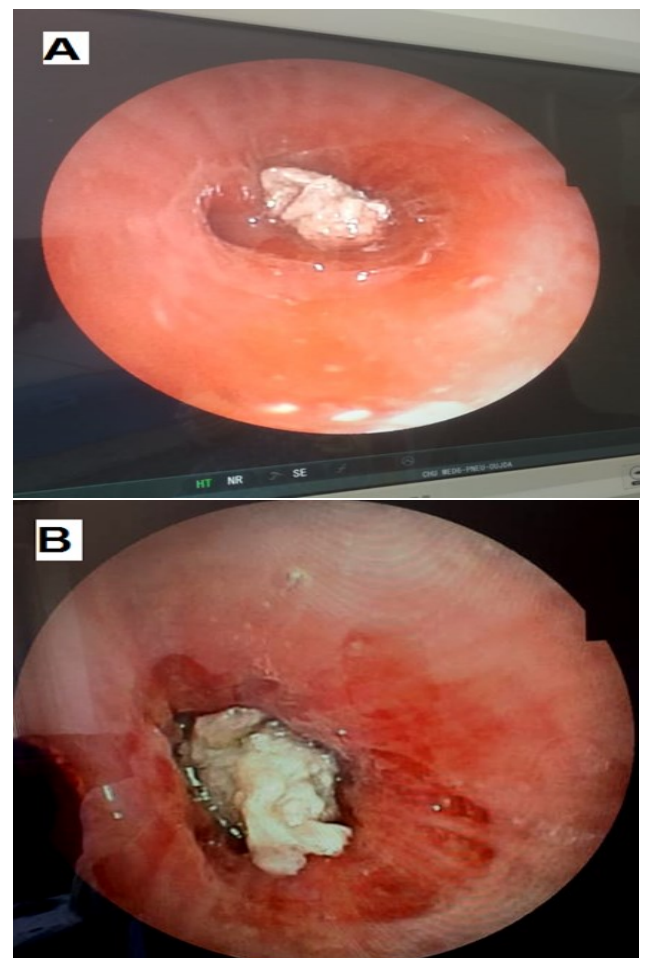


FIGURE 3. Aspects bronchoscopiques montrant des moules bronchiques provenant de culmen (A) et de pyramide basale gauche (B).



**FIGURE 4.** des moules bronchiques retirés lors de la fibroscopie bronchique chez notre patient.

On a réalisé une aspiration bronchique de matériel blanchâtre (Figure 4) dont l'étude bactériologique, parasitologique, mycologique et recherche de BK étaient négatives.

L'examen anatomopathologique de matériel prélevé par fibroscopie montre un tissu fibreux lâche avec quelques cellules inflammatoires.

En prenant compte les données cliniques de l'imagerie et la recherche étiologique négative : on a conclu qu'il s'agissait d'une bronchite plastique avec cause sous-jacente une dilatation des bronches localisée.

Le patient a été mis sous traitement antibiotique avec des séances de kinésithérapie ce qui a permis une évolution favorable avec régression de la toux et la dyspnée.

## DISCUSSION

La maladie des moules bronchiques ou bronchite plastique (BP) est définie par l'obstruction étendue de l'arbre bronchique par des moules épais, ramifiés et fortement adhérents au mur bronchique [1]. Cette

maladie, si elle est rare, n'en est pas moins connue depuis l'antiquité.

Elle a été décrite pour la première fois par Galien qui a considéré le produit d'expectoration comme; « venae arteriosae expectorantii », ce qui signifie, des expectorations artérielles et veineuses [3].

En 1956, Soulas et Mounier-Kuhn la dissocient des bronchites pseudo-membraneuses et la décrivent comme une maladie autonome et primitive [4].

Jusqu'à récemment, les mécanismes pathogènes sous-jacents à cette entité pathologique restent mal connus [5].

L'incidence réelle de la BP reste encore inconnue : moins de 600 cas sont signalés dans la littérature à ce jour [2].

C'est une maladie plus fréquente chez les enfants que les adultes [6].

Dans notre cas notre patient est très jeune âgé de 16 ans. La revue de la littérature retrouve chez l'adulte comme chez l'enfant le même schéma de classification simple, établi par Sear et al, divisant la BP en deux types [7].

Type 1, caractérisé par des moules contenant des infiltrats cellulaires (cellules épithéliales bronchiques, cellules inflammatoires et éosinophiles), de la Fibrine et peu de mucus.

La BP type 2 : caractérisée par des moules contenant peu de fibrine, de mucus avec très peu de cellules mononuclées [7-9].

Dans les formes décrites chez l'adulte, on retrouve une prédominance féminine dans les formes de type 2.

Trois études ont retrouvé chez des femmes, toutes ayant des antécédents de cardiopathies sévères ayant bénéficié d'un pontage aorto-coronarien à l'origine de la bronchite plastique de type 2 acellulaire [10-11].

Chez l'adulte, l'origine tuberculeuse de la BP est décrite par d'autres auteurs tels que N. Amangar [12] et H. Kouismi [13].

Dans notre cas, on retrouve une cause sous-jacente la plus probable devant l'existence d'un foyer de dilatation des bronches kystique localisé.

Dans d'autres cas, l'étiologie est non précisée et on conclut à une BP idiopathique.

Sur le plan thérapeutique, outre l'extraction endo-

-scopique du moule, souvent indispensable car le pronostic vital du patient peut être mis en jeu, le traitement dépend de l'étiologie.

Dans notre cas on a procédé à l'aspiration par bronchoscopie des matériaux bronchiques avec des séances de kinésithérapie respiratoire et la mise sous antibiothérapie ce qui avait amélioré favorablement l'état clinique de notre patient.

Il ya d'autres moyens thérapeutiques décrit dans la littérature pour prévenir la récurrence du moule:

*Une corticothérapie inhalée ou générale est plutôt indiquée dans la BP de type acellulaire.*

*Une antibiothérapie au long cours par macrolides à faibles doses semble avoir une action bénéfique dans les BP inflammatoires [9].*

*Une correction chirurgicale d'une cardiopathie ou d'une anomalie lymphatique.*

#### CONFLIT D'INTERET

Aucun.

#### REFERENCES

1. Bowen A, Oudjhane K, Odagiri K, et al. Plastic bronchitis: large, branching, mucoid bronchial casts in children. *AJR* 1985;144:371–5.
2. Downey GP, Aschner Y. Chasing the lymph: new clues for the management of idiopathic plastic bronchitis. *Ann Am Thorac Soc* 2016;3:1671–3.
3. Johnson R, Sita-Lumpfen EG. Plastic bronchitis. *Thorax* 1960;15:325–32.
4. Soulas A, Mounier-Kuhn P. Bronchologie technique endoscopique et pathologie trachéobronchique. Paris: Masson Ed.;1956. p. 339–51.
5. Itkin MG, Mc Cormack FX, Dori Y. Diagnosis and treatment of lymphatic plastic bronchitis in adults using advanced lymphatic imaging and percutaneous embolization. *Ann Am Thorac Soc* 2016;13:1689–96.
6. Castet D, Lavandier M, Asquier E, et al. Moules bronchiques associés à des anomalies lymphatiques pulmonaires. *Rev Mal Respir* 1998;15:89–91.
7. Seear M, Hui H, Magee F, Bohn D, Cutz E. Bronchial casts in children: a proposed classification based on nine cases and review of the literature. *Am J Respir Crit Care Med* 1997;155: 364-70.
8. Eberlein MH, Drummond MB, Haponik EF. Plastic bronchitis: a management challenge. *Am J Med Sci* 2008;335:163–9.
9. Park JY, Elshami AA, Kang DS, et al. Plastic bronchitis. *Eur Respir J* 1996;9:612–4.
10. Patil MH, Siddiqi A, Jeffrey Mador M. Successful bronchoscopy in a pregnant patient with plastic bronchitis. *Respir Med Case Rep* 2016;18:8–9.
11. Stoddart A, Dincer HE, Iber C, et al. Chyloptysis causing plastic bronchitis. *Respir Med Case Rep* 2014;13:4–6.
12. N. Amangar, H. Moubachir, J.E. Bourkadi, et al. Plastic bronchitis: report of six pediatric cases *Rev Fr Allergol*, 53 (2013), pp. 624-627
13. Kouismi H, Zahraoui R, Bourkadi JE, et al. La bronchite plastique : à propos d'une observation. *J Fran Viet Pneu* 2013;04:1–44.
14. Manna SS, Shaw J, Tibby SM, Durward A. Treatment of plastic bronchitis in acute chest syndrome of sickle cell disease with intratracheal rhDNase. *Arch Dis Child* 2003;88:626-7.
15. Costello JM, Steinhorn D, Mc Colley S, Mark E, Kumar SP. Treatment of plastic bronchitis in a Fontan patient with tissue plasminogen activator: A case report and review of the literature. *Pediatrics* 2002;109:e67.
16. Quasney MW, Orman K, Thompson J, Ring JC, Salim M, Schoumacher RA, et al. Plastic bronchitis occurring late after the Fontan procedure treatment with aerosolized urokinase. *Crit Care Med* 2000;28:2107-1

*Un traitement local par instillation endoscopique de DNase recombinante humaine (rh-DNase) [14] ou par aérosols de l'activateur tissulaire de plasminogène (t-PA) [15] ou d'urokinase [16] ont fait état d'une certaine efficacité concernant des cas isolés ou de faibles séries de BP récurrentes.*

*Une meilleure compréhension de l'état de l'hypersécrétion bronchique lors de la bronchite plastique peut permettre d'adopter une bonne conduite thérapeutique spécifique et plus efficace.*

#### CONCLUSION

La présence d'expectorations solides et ramifiées doit faire penser à la maladie des moules bronchiques et inciter à réaliser une fibroscopie bronchique à visée diagnostique et thérapeutique. La prise en charge doit être précoce pour éviter des complications.