

Grossesse gémellaire spontanée de découverte fortuite dans un utérus didelphe.

Spontaneous gemellar pregnancy of fortuite discovery in a didelphe uterus.

Konan NJM¹, Adjoussou S¹, Olou L¹, Brou M¹, Coulibaly A¹, Kpan P¹ J, Koné M¹

¹CHU (centre hospitalier universitaire) de Yopougon, ABIDAN, service de gynécologie-obstétrique

Correspondances : KONAN N'Guessan Jean-Marie Perel, Gynécologue obstétricien, assistant chef de clinique, département mère-enfant, UFR sciences médicales, université Félix Houphouët-Boigny Abidjan. Tel +2250707683601/konanperel@gmail.com

Reçu : le 24 mars 2021 - Accepté : le 20 août 2021 - Publié : le 3 septembre 2021

RESUME

La survenue d'une grossesse gémellaire spontanée sur utérus didelphe est une situation clinique exceptionnelle. Les auteurs rapportent un cas de grossesse gémellaire développée simultanément dans chaque cavité d'un utérus didelphe découvert lors d'une césarienne pour rétention du 2^{ème} jumeau. Cette malformation utérine pas connue avant la conception. La patiente, primigeste, n'avait fait aucun bilan anténatal et n'avait réalisé qu'une seule consultation prénatale. A travers ce cas, les auteurs rappellent la rareté de la grossesse gémellaire sur utérus didelphe et les risques obstétricaux liés à l'accouchement sur un utérus malformé.

Mots Clés : Grossesse gemellaire, utérus didelphe, accouchement.

ABSTRACT

The occurrence of spontaneous twin pregnancy in a didelphic uterus is an exceptional clinical situation. The authors report one case of twin pregnancy developed simultaneously in each cavity of a didelphic uterus discovered during a cesarean section for retention of the second twin. This malformation was not known until conception. The patient, primigest, had no antenatal check-up and had only performed one antenatal visit. Through this clinical fact, the authors point out the rarity of twin pregnancy in a didelphic uterus and the obstetric risks associated with childbirth in a malformed uterus.

KEY WORDS : Twin pregnancy, didelphic uterus, childbirth.

INTRODUCTION

Les malformations utérines sont d'origine congénitale et touchent 3 à 4% de la population féminine [1]. Elles sont dominées par les utérus bicornes et sont le plus souvent découvertes de façon fortuite soit au cours d'un bilan pour fausses couches à répétition ou un bilan d'infertilité. L'intérêt de ce cas clinique est de rappeler la rareté de la grossesse gémellaire sur utérus didelphe et les risques obstétricaux liés à l'accouchement sur utérus malformé.

OBSERVATION

Madame KAV, 20 ans, primigeste, est reçue en urgence à la maternité du CHU de Yopougon en provenance d'une maternité périphérique pour présentation dystocique du 2^{ème} jumeau. Le diagnostic de grossesse gémellaire a été suspecté dans ladite maternité devant une hauteur utérine excessive (48 cm) avec perception de deux foyers cardiaques à l'auscultation. La gestante est accouchée le même jour du 1^{er} jumeau, de sexe masculin, pesant 2300g avec un score d'Apgar de 8-8 à la première et à la cinquième minute. Devant le retard à l'expulsion du second jumeau (1 heure de temps), la parturiente est évacuée dans notre service pour prise en charge.

A son arrivée 4 heures après l'accouchement du premier jumeau, l'interrogatoire avait révélé qu'il s'agissait d'une grossesse gémellaire spontanée. Le suivi prénatal était de mauvaise qualité, parce que n'ayant réalisé qu'une seule Consultation pré natale, aucun bilan biologique et aucune échographie obstétricale. L'état général était bon et les constantes hémodynamiques normales. L'examen obstétrical objectivait : un utérus gravide à grand axe longitudinal. La hauteur utérine était à 30 cm et on notait 2 contractions de faible intensité en 10 minutes. Les bruits du cœur fœtal étaient réguliers à 140 battements par minute. Le toucher vaginal met en évidence un col dilaté à 3 cm mais épais avec une présentation céphalique haute. Les membranes étaient rompues. Le placenta du premier fœtus était en place et on notait un saignement minime à la vulve. En conclusion il s'agissait d'une rétention du second jumeau. L'indication de césarienne est posée et réalisée en urgence. Par une laparotomie transversale l'on découvre un utérus bicorne dont la cavité droite contenait le second jumeau qui sera extrait par une hystérotomie segmentaire transversale. On procède à l'extraction d'un nouveau-né dont l'examen morphologique est normal (**voir figure 1**). Il s'agissait d'un garçon pesant 2500g avec un bon score d'Apgar 7-8 en 5 minutes. Nous avons ensuite réalisé dans un 2^{ème} temps une délivrance artificielle pour extraire le placenta de la cavité controlatérale et avons mis en place une perfusion d'ocytocine. Dans le post-partum immédiat, l'examen sous valves permet d'identifier deux cols utérins avec un vagin unique sans septum vaginal.

Nous avons alors conclu à un utérus bicorne bicervical (utérus didelphe). Les suites de couches sont simples et la patiente est exéat à J3 post opératoire.

DISCUSSION

Les malformations utérines sont rares et touchent 0,5 à 4% de la population féminine générale [1,2]. L'estimation de la fréquence des grossesses survenant sur utérus malformé reste difficile dans notre contexte. En effet, le diagnostic préconceptionnel est quasi inexistant. Parfois c'est le diagnostic anténatal qui fait défaut dans les pays sous médicalisés comme le nôtre. En France les grossesses sur utérus malformé représentent 304 sur 48355 accouchements selon l'étude de Guinard réalisée sur 10 ans [3]. La survenue spontanée d'une grossesse gémellaire sur utérus didelphe avec développement d'un fœtus dans chaque cavité est un événement exceptionnel. Sa fréquence est de 1 pour 1 million de grossesses [4]. Dans sa série portant sur 26 femmes ayant un utérus didelphe, Heinonen a noté seulement 2 cas de grossesses gémellaires développées simultanément dans chaque cavité sur un total de 40 grossesses totalisées par 18 femmes pendant les 21 années qu'a duré cette cohorte [5]. D'autres cas similaires ont déjà été décrits un peu partout dans le monde [6-10].

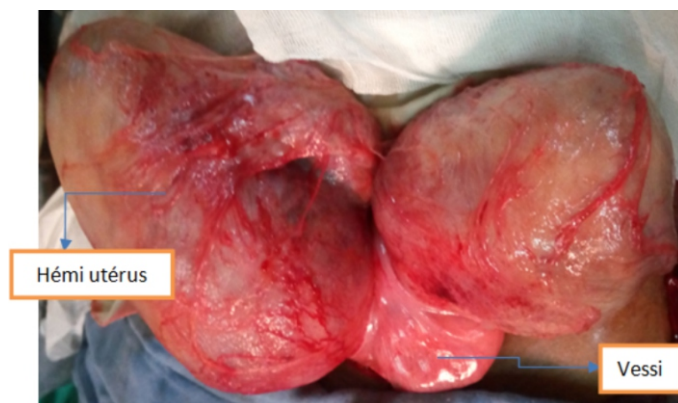


Figure 1 : les 2 hémi utérus

Les utérus didelphes sont des utérus bicornes bicervicaux qui répondent au type III de la classification de la société américaine de fertilité. Ils découlent du défaut de fusion des canaux de Müller conduisant ainsi à une duplication utérine. L'embryogenèse de l'appareil génital et du système urinaire étant intimement liée, ces troubles entraînent parfois l'association d'anomalies de ces deux systèmes [2,11].

Le développement de deux fœtus dans chaque cavité d'un utérus bicorne (y compris didelphe) en dehors des grossesses induites implique trois mécanismes ou théories. Le premier est celui de la superfœtation qui reste exceptionnel chez l'humain : la superfœtation est la survenue d'une seconde ovulation entraînant une deuxième grossesse alors que la première se développe déjà. Elle serait liée à une deuxième ovulation suite

à la production de β HCG plasmatique. On évoque également un mécanisme génétique capable de générer la production de β HCG pour déclencher la seconde ovulation. En cas de superfœtation la différence de terme (2 à 4 semaines) est retrouvée. Toutefois, il faut éliminer un retard de croissance intra-utérin (RCIU) d'un jumeau ou un syndrome transfuseur-transfusé [12,13]. Cette théorie ne peut s'appliquer à notre cas car les deux nouveau-nés avaient pratiquement un poids de naissance identique. Le second mécanisme est la superfécondation impliquant la survenue de deux fécondations rapprochées. Les deux ovules peuvent être fécondés par deux spermatozoïdes différents donnant ainsi des jumeaux dizygotes pouvant avoir une paternité différente [14]. Enfin, le dernier mécanisme est celui d'une double ovulation simultanée. [12,13].

Le diagnostic clinique des malformations utérines est délicat car asymptomatiques dans 50% des cas. La découverte est faite le plus souvent de façon fortuite lors d'un bilan pour infertilité ou pour fausses couches à répétition [2]. En cas d'utérus didelphe avec héli-utérus non perméable, les symptômes sont dominés par les dysménorrhées et les dyspareunies [5]. L'échographie objective dans ce cas une hémato-colpométrie et peut identifier les deux cavités utérines séparées par une cloison. Elle recherche d'autres malformations associées.

L'hystérosalpingographie, l'imagerie par résonance magnétique et la coelioscopie confirment le diagnostic [5]. Concernant la prise en charge, en dehors de la grossesse, le traitement est d'abord symptomatique mais peut faire appel à la chirurgie pour une excision d'un septum ou d'un vagin borgne [5]. Il est recommandé de mettre en place un traitement symptomatique lorsque le diagnostic est posé en début de grossesse : repos, maturation pulmonaire, surveillance échographique (croissance fœtale, compétence cervicale). Le cerclage prophylactique n'est pas systématique et n'est conçu qu'en cas de béance cervical avéré. Seulement deux gestantes porteuses d'utérus didelphes sur 18 ont été cerclées dans l'étude de Heinonen [5]. Chez notre patiente le diagnostic a été fait fortuitement au cours de la césarienne. Ce diagnostic aurait pu être précoce si un bilan anténatal avait été pratiqué. Une exploration ultérieure a été programmée et devrait permettre de rechercher d'autres malformations mais la patiente est perdue de vue. Cliniquement, le diagnostic de l'utérus didelphe peut être suspecté devant la présence d'un septum vaginal et deux cols distincts. Lorsqu'il existe un héli-vagin borgne, la symptomatologie de l'hémato-colpos associé à l'hématométrie aide au diagnostic. Notre patiente était asymptomatique car ces deux héli-utérus étaient

vaginal pouvant entraîner des dyspareunies. Dans la quasi-totalité des cas rencontrés, le septum vaginal était constant [4,5].

L'accouchement sur utérus malformé comporte de hauts risques obstétricaux à cause des fausses couches spontanées, de la prématurité, des présentations dystociques, de la rupture prématurée des membranes, et des retards de croissance intra-utérins, les hémorragies du post partum [15]. La césarienne représente la voie d'accouchement privilégiée avec un taux oscillant entre 27 et 83% à cause des dystocies qui y sont fréquentes et le taux élevé des utérus cicatriciels [5]. En ce qui concerne spécifiquement l'accouchement des grossesses gémellaires sur utérus didelphe, la voie vaginale est possible mais le mode d'accouchement est dominé par la césarienne. Néanmoins des cas d'accouchement différé du deuxième jumeau ont été notés. Le délai entre les deux accouchements est variable. Dans notre cas, ce délai était de 4 heures. Il est de 66 jours pour Nohara avec une première naissance à 25 semaines d'aménorrhée (SA) pour une rupture prématurée des membranes compliquée d'une infection amnio-choriale. Le deuxième jumeau est né par voie vaginale [6]. Le travail simultané est possible et fait intervenir une interconnexion entre les fibres du myomètre qui s'activeraient de façon synchrone [4]. Chez notre patiente nous pensons que le travail n'a pas débuté au même moment dans les deux cavités. Nous aurions pu tenter une voie basse si nous savions au préalable que chaque fœtus était développé dans un héli-utérus. La voie basse était donc possible avec les risques de dystocie dynamique ou mécanique. L'utérus controlatéral pouvant faire obstacle *prævia*. Les risques d'hémorragie de la délivrance sont majorés en cas d'accouchement sur utérus malformé du fait de la rétention placentaire et de l'atonie utérine due à la mauvaise contractilité de l'utérus [3,5]. Notre patiente était exposée aux hémorragies car elle a présenté une rétention du deuxième placenta que nous avons extrait par une délivrance artificielle après la fermeture pariétale.

Le pronostic périnatal est réservé à cause de la prématurité. Quand la grossesse arrive à son terme, le poids des fœtus est normal malgré le fait que les malformations utérines soient connues pour favoriser les RCIU [3]. Les petits poids de naissance en cas d'utérus didelphe sont liés à la prématurité et à la gémellité. Quoique nous ne sachions pas le terme exact de cette grossesse, nous pensons qu'elle serait probablement à terme au vu de l'examen clinique des enfants qui ne notait pas de signes en faveur d'une prématurité (voir figure 2). Ils ne présentaient ni malformation, ni déformation. La mortalité périnatale est faible en cas d'accouchement sur utérus didelphe et concernait 3,6% des naissances. Le taux de survie était de 68% selon l'étude de Heinonen [5].



Figure 2 : Nouveau-nés au 2^{ème} jour de vie.

CONCLUSION

La survenue de grossesse gémellaire spontanée sur utérus didelphe est une situation clinique exceptionnelle. L'accouchement sur un tel utérus malformé comporte de nombreux risques obstétricaux. La césarienne est le mode d'accouchement privilégié. Dans nos régions sous médicalisées, où le dépistage pré conceptionnel et le bilan pré nuptial sont quasi-inexistants, il faudrait promouvoir le suivi prénatal régulier avec des échographies de qualité. Ceci permettra un diagnostic précoce et une prise en charge adaptée en milieu spécialisé afin de réduire les risques de complications obstétricales et périnatales.

REFERENCES

1. **Poncelet C, Aissaoui F.** Malformations utérines et reproduction. *Gynecol Obstet Fertil* 2007 ;35 :821-5.
2. **Rossier M-C, Bays V, Vial Y, Achtari C.** Les malformations utérines : diagnostic, pronostic et prise en charge en 2008. *Rev Med Suisse* 2008 ;4 :2253-63.
3. **Guinard E, Subtil D, Deruelle P.** Malformations utérines et voie d'accouchement : analyse de 304 cas entre 2000 et 2010 au CHUR de Lille. *Gynecol Obstet Fertil* 2014 ; 42 : 471-6.

4. **Maki Y, Furukawa S, Sameshima H, Ikenoue T.** Independent uterine contractions in simultaneous twin pregnancy in each horn of the uterus didelphys. *J Obstet Gynaecol Res* 2014; 40 (3): 836-9.
5. **Heinonen PK.** Uterus didelphys: a report on 26 cases. *Euro J Obstet Gynec Biol* 1984; 17: 345-350
6. **Nohara M, Nakayama M, Masamoto H, Nakazato K, Sakumoto K, Kanazawa K.** Twin pregnancy in each half of a uterus didelphys with a delivery interval of 66 days. *Br J Obstet Gynaecol* 2003 ; 110 (3): 331-2.
7. **Kekkonen R, Nuutila M, Laatikainen T.** Twin pregnancy with a fetus in each half of a uterus didelphys. *Acta Obstet Gynecol Scand.* 1991;70(4-5):373-4.
8. **Brown O, Mahendran D, Lieberman B.** A twin pregnancy in a uterus didelphys. *J Obstet and Gynaecol* 1999; 19(1): 82-3
9. **Ahmad FK, Sherman SJ, Hagglund KH.** Twin gestation in a woman with a uterus didelphys. A case report. *J Reprod Med.* 2000 Apr; 45(4):357-9.
10. **Cruceyra M, Iglesias C, De La Calle M, Sancha M, Magallón SL, González A.** Successful Delivery of a Twin Pregnancy in a Bicornuate Uterus by Bilateral Caesarean Section. *J Obstet Gynaecol Can* 2011;33(2):142-4.
11. **The American Fertility Society.** Classifications of adnexal adhesions, distal tubal occlusion, tubal occlusion secondary to tubal ligation, tubal pregnancies, mullerian anomalies and intrauterine adhesions. *Fertil Steril* 1988; 49:944-55.
12. **Pape O, Winer N, Paumier A, Philippe H-J, Flatrès B, Boog G.** Superfoetation : à propos d'un cas et revue de la littérature. *J Gynecol Obstet et Biol Reprod* (2008) ; 37 : 791-5.
13. **Singhal SR, Agarwal U, Sharma D, Sen J.** Superfetation in uterus pseudo didelphys: an unreported event. *Arch Gynecol Obstet* 2003;268:243-4.
14. **Wenk RE, Houtz T, Brooks M, Chiafari FA.** How frequent is heteropaternal superfecundation ? *Acta Genet Med Gemellol (Roma)* 1992;41:43-7.
- Patton PE, Novy MJ.** Reproductive potential of the anomalous uterus. *Sem Reprod Endocrinol* 1988;6:217-33