

Année 2018/2019

N°

Thèse

Pour le

DOCTORAT EN MEDECINE

Diplôme d'État
par

Iris MA

Né(e) le 7 janvier 1991 à Paris 12^{ème} (75)

Stenting des sténoses des branches artérielles pulmonaires dans les cardiopathies congénitales : une solution efficace sur le long terme ?

Présentée et soutenue publiquement le **24 juin 2019** devant un jury composé de :

Président du Jury : Professeur Dominique BABUTY, Cardiologie, Faculté de Médecine – Tours

Membres du Jury : Professeur Denis ANGOULVANT, Cardiologie, Faculté de Médecine – Tours

Professeur Anne BERNARD, Cardiologie, Faculté de Médecine – Tours

Docteur Fanny DION, Cardiologie, PH, CHU – Tours

Docteur Paul NEVILLE, Chirurgie Cardiaque Pédiatrique, PH, CHU – Tours

Directeur de thèse : Docteur Bruno LEFORT, Pédiatrie, PHU, Faculté de Médecine – Tours

UNIVERSITE DE TOURS
FACULTE DE MEDECINE DE TOURS

DOYEN
Pr Patrice DIOT

VICE-DOYEN
Pr Henri MARRET

ASSESSEURS
Pr Denis ANGOULVANT, *Pédagogie*
Pr Mathias BUCHLER, *Relations internationales*
Pr Hubert LARDY, *Moyens – relations avec l'Université*
Pr Anne-Marie LEHR-DRYLEWICZ, *Médecine générale*
Pr François MAILLOT, *Formation Médicale Continue*
Pr Patrick VOURC'H, *Recherche*

RESPONSABLE ADMINISTRATIVE
Mme Fanny BOBLETER

DOYENS HONORAIRES
Pr Emile ARON (†) – 1962-1966
Directeur de l'Ecole de Médecine - 1947-1962
Pr Georges DESBUQUOIS (†) – 1966-1972
Pr André GOUAZE – 1972-1994
Pr Jean-Claude ROLLAND – 1994-2004
Pr Dominique PERROTIN – 2004-2014

PROFESSEURS EMERITES
Pr Daniel ALISON
Pr Philippe ARBEILLE
Pr Catherine BARTHELEMY
Pr Christian BONNARD
Pr Philippe BOUGNOUX
Pr Alain CHANTEPIE
Pr Pierre COSNAY
Pr Etienne DANQUECHIN-DORVAL
Pr Loïc DE LA LANDE DE CALAN
Pr Alain GOUDEAU
Pr Noël HUTEN
Pr Olivier LE FLOCH
Pr Yvon LEBRANCHU
Pr Elisabeth LECA
Pr Anne-Marie LEHR-DRYLEWICZ
Pr Gérard LORETTE
Pr Roland QUENTIN
Pr Alain ROBIER
Pr Elie SALIBA

PROFESSEURS HONORAIRES
P. ANTHONIOZ – A. AUDURIER – A. AUTRET – P. BAGROS – P. BARDOS – J.L. BAULIEU – C. BERGER – JC. BESNARD – P. BEUTTER – P. BONNET – M. BROCHIER – P. BURDIN – L. CASTELLANI – B. CHARBONNIER – P. CHOUTET – T. CONSTANS – C. COUET – J.P. FAUCHIER – F. FETISSOF – J. FUSCIARDI – P. GAILLARD – G. GINIES – A. GOUAZE – J.L. GUILMOT – M. JAN – J.P. LAMAGNERE – F. LAMISSE – Y. LANSON – J. LAUGIER – P. LECOMTE – E. LEMARIE – G. LEROY – Y. LHUINTE – M. MARCHAND – C. MAURAGE – C. MERCIER – J. MOLINE – C. MORAIN – J.P. MUH – J. MURAT – H. NIVET – L. POURCELOT – P. RAYNAUD – D. RICHARD-LENOBLE – J.C. ROLLAND – D. ROYERE – A. SAINDELLE – J.J. SANTINI – D. SAUVAGE – D. SIRINELLI – B. TOUMIEUX – J. WEILL

PROFESSEURS DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

ANDRES Christian.....	Biochimie et biologie moléculaire
ANGOULVANT Denis	Cardiologie
AUPART Michel.....	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
BABUTY Dominique	Cardiologie
BALLON Nicolas.....	Psychiatrie ; addictologie
BARILLOT Isabelle.....	Cancérologie ; radiothérapie
BARON Christophe	Immunologie
BEJAN-ANGOULVANT Théodora	Pharmacologie clinique
BERNARD Anne	Cardiologie
BERNARD Louis	Maladies infectieuses et maladies tropicales
BLANCHARD-LAUMONNIER Emmanuelle	Biologie cellulaire
BLASCO Hélène.....	Biochimie et biologie moléculaire
BODY Gilles	Gynécologie et obstétrique
BONNET-BRILHAULT Frédérique	Physiologie
BRILHAULT Jean.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BRUNEREAU Laurent	Radiologie et imagerie médicale
BRUYERE Franck.....	Urologie
BUCHLER Matthias.....	Néphrologie
CALAIS Gilles	Cancérologie, radiothérapie
CAMUS Vincent.....	Psychiatrie d'adultes
CHANDENIER Jacques.....	Parasitologie, mycologie
COLOMBAT Philippe.....	Hématologie, transfusion
CORCIA Philippe.....	Neurologie
COTTIER Jean-Philippe	Radiologie et imagerie médicale
DE TOFFOL Bertrand	Neurologie
DEQUIN Pierre-François.....	Thérapeutique
DESOUBEAUX Guillaume.....	Parasitologie et mycologie
DESTRIEUX Christophe	Anatomie
DIOT Patrice.....	Pneumologie
DU BOUEXIC de PINIEUX Gonzague	Anatomie & cytologie pathologiques
DUCLUZEAU Pierre-Henri.....	Endocrinologie, diabétologie, et nutrition
DUMONT Pascal	Chirurgie thoracique et cardiovasculaire
EL HAGE Wissam.....	Psychiatrie adultes
EHRMANN Stephan	Réanimation
FAUCHIER Laurent	Cardiologie
FAVARD Luc.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
FOUGERE Bertrand	Gériatrie
FOUQUET Bernard.....	Médecine physique et de réadaptation
FRANCOIS Patrick.....	Neurochirurgie
FROMONT-HANKARD Gaëlle	Anatomie & cytologie pathologiques
GAUDY-GRAFFIN Catherine.....	Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière
GOGA Dominique	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
GOUPILLE Philippe	Rhumatologie
GRUEL Yves.....	Hématologie, transfusion
GUERIF Fabrice	Biologie et médecine du développement et de la reproduction
GUYETANT Serge	Anatomie et cytologie pathologiques
GYAN Emmanuel.....	Hématologie, transfusion
HAILLOT Olivier.....	Urologie
HALIMI Jean-Michel.....	Thérapeutique
HANKARD Régis.....	Pédiatrie
HERAULT Olivier	Hématologie, transfusion
HERBRETEAU Denis	Radiologie et imagerie médicale
HOURIOUX Christophe.....	Biologie cellulaire
LABARTHE François	Pédiatrie
LAFFON Marc	Anesthésiologie et réanimation chirurgicale, médecine d'urgence
LARDY Hubert.....	Chirurgie infantile
LARIBI Saïd.....	Médecine d'urgence
LARTIGUE Marie-Frédérique	Bactériologie-virologie
LAURE Boris.....	Chirurgie maxillo-faciale et stomatologie
LECOMTE Thierry.....	Gastroentérologie, hépatologie
LESCANNE Emmanuel.....	Oto-rhino-laryngologie
LINASSIER Claude	Cancérologie, radiothérapie
MACHET Laurent	Dermato-vénéréologie
MAILLOT François	Médecine interne
MARCHAND-ADAM Sylvain	Pneumologie

MARRET Henri	Gynécologie-obstétrique
MARUANI Annabel	Dermatologie-vénéréologie
MEREGHETTI Laurent.....	Bactériologie-virologie ; hygiène hospitalière
MORINIERE Sylvain.....	Oto-rhino-laryngologie
MOUSSATA Driffa	Gastro-entérologie
MULLEMAN Denis.....	Rhumatologie
ODENT Thierry.....	Chirurgie infantile
OUAISSI Mehdi	Chirurgie digestive
OULDAMER Lobna.....	Gynécologie-obstétrique
PAGES Jean-Christophe	Biochimie et biologie moléculaire
PAINTAUD Gilles	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
PATAT Frédéric	Biophysique et médecine nucléaire
PERROTIN Dominique.....	Réanimation médicale, médecine d'urgence
PERROTIN Franck	Gynécologie-obstétrique
PISELLA Pierre-Jean.....	Ophtalmologie
PLANTIER Laurent.....	Physiologie
REMERAND Francis.....	Anesthésiologie et réanimation, médecine d'urgence
ROINGEARD Philippe.....	Biologie cellulaire
ROSSET Philippe.....	Chirurgie orthopédique et traumatologique
RUSCH Emmanuel.....	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
SAINT-MARTIN Pauline.....	Médecine légale et droit de la santé
SALAME Ephrem.....	Chirurgie digestive
SAMIMI Mahtab	Dermatologie-vénéréologie
SANTIAGO-RIBEIRO Maria	Biophysique et médecine nucléaire
THOMAS-CASTELNAU Pierre	Pédiatrie
TOUTAIN Annick.....	Génétique
VAILLANT Loïc.....	Dermato-vénéréologie
VELUT Stéphane.....	Anatomie
VOURC'H Patrick.....	Biochimie et biologie moléculaire
WATIER Hervé	Immunologie

PROFESSEUR DES UNIVERSITES DE MEDECINE GENERALE

LEBEAU Jean-Pierre

PROFESSEURS ASSOCIES

MALLET Donatien	Soins palliatifs
POTIER Alain	Médecine Générale
ROBERT Jean.....	Médecine Générale

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES - PRATICIENS HOSPITALIERS

BAKHOS David	Physiologie
BARBIER Louise.....	Chirurgie digestive
BERHOUET Julien	Chirurgie orthopédique et traumatologique
BERTRAND Philippe.....	Biostat., informatique médical et technologies de communication
BRUNAUT Paul	Psychiatrie d'adultes, addictologie
CAILLE Agnès	Biostat., informatique médical et technologies de communication
CLEMENTY Nicolas	Cardiologie
DOMELIER Anne-Sophie	Bactériologie-virologie, hygiène hospitalière
DUFOUR Diane	Biophysique et médecine nucléaire
FAVRAIS Géraldine	Pédiatrie
FOUQUET-BERGEMER Anne-Marie.....	Anatomie et cytologie pathologiques
GATAULT Philippe.....	Néphrologie
GOUILLEUX Valérie.....	Immunologie
GUILLON Antoine.....	Réanimation
GUILLON-GRAMMATICO Leslie.....	Epidémiologie, économie de la santé et prévention
HOARAU Cyrille	Immunologie
IVANES Fabrice	Physiologie
LE GUELLEC Chantal.....	Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
MACHET Marie-Christine	Anatomie et cytologie pathologiques
MOREL Baptiste	Radiologie pédiatrique
PIVER Éric.....	Biochimie et biologie moléculaire

REROLLE Camille.....Médecine légale
 ROUMY Jérôme.....Biophysique et médecine nucléaire
 SAUTENET BénédicteNéphrologie
 TERNANT David.....Pharmacologie fondamentale, pharmacologie clinique
 ZEMMOURA IlyessNeurochirurgie

MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES

AGUILLON-HERNANDEZ Nadia.....Neurosciences
 BOREL Stéphanie.....Orthophonie
 DIBAO-DINA ClarisseMédecine Générale
 MONJAUZE CécileSciences du langage - orthophonie
 PATIENT Romuald.....Biologie cellulaire
 RENOUX-JACQUET CécileMédecine Générale

MAITRES DE CONFERENCES ASSOCIES

RUIZ Christophe.....Médecine Générale
 SAMKO Boris.....Médecine Générale

CHERCHEURS INSERM - CNRS - INRA

BOUAKAZ AyacheDirecteur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
 CHALON SylvieDirecteur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
 COURTY YvesChargé de Recherche CNRS – UMR INSERM 1100
 DE ROCQUIGNY HuguesChargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1259
 ESCOFFRE Jean-Michel.....Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
 GILOT Philippe.....Chargé de Recherche INRA – UMR INRA 1282
 GOUILLEUX FabriceDirecteur de Recherche CNRS – UMR CNRS 7001
 GOMOT Marie.....Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
 HEUZE-VOURCH Nathalie.....Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
 KORKMAZ Brice.....Chargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
 LAUMONNIER FrédéricChargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253
 LE PAPE Alain.....Directeur de Recherche CNRS – UMR INSERM 1100
 MAZURIER Frédéric.....Directeur de Recherche INSERM – UMR CNRS 7001
 MEUNIER Jean-ChristopheChargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1259
 PAGET ChristopheChargé de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
 RAOUL William.....Chargé de Recherche INSERM – UMR CNRS 7001
 SI TAHAR Mustapha.....Directeur de Recherche INSERM – UMR INSERM 1100
 WARDAK Claire.....Chargée de Recherche INSERM – UMR INSERM 1253

CHARGES D'ENSEIGNEMENT

Pour l'Ecole d'Orthophonie

DELORE ClaireOrthophoniste
 GOUIN Jean-Marie.....Praticien Hospitalier
 PERRIER DanièleOrthophoniste

Pour l'Ecole d'Orthoptie

LALA Emmanuelle.....Praticien Hospitalier
 MAJZOUB Samuel.....Praticien Hospitalier

Pour l'Ethique Médicale

BIRMELE Béatrice.....Praticien Hospitalier

SERMENT D'HIPPOCRATE

En présence des Maîtres de cette Faculté,
de mes chers condisciples
et selon la tradition d'Hippocrate,
je promets et je jure d'être fidèle aux lois de l'honneur
et de la probité dans l'exercice de la Médecine.

Je donnerai mes soins gratuits à l'indigent,
et n'exigerai jamais un salaire au-dessus de mon travail.

Admis dans l'intérieur des maisons, mes yeux
ne verront pas ce qui s'y passe, ma langue taira
les secrets qui me seront confiés et mon état ne servira pas
à corrompre les mœurs ni à favoriser le crime.

Respectueux et reconnaissant envers mes Maîtres,
je rendrai à leurs enfants
l'instruction que j'ai reçue de leurs pères.

Que les hommes m'accordent leur estime
si je suis fidèle à mes promesses.
Que je sois couvert d'opprobre
et méprisé de mes confrères
si j'y manque.

Remerciements

Aux membres du jury :

À Monsieur le **Professeur Dominique BABUTY**, pour votre rôle de chef de service tenu avec brio, votre disponibilité, votre humour et votre bonne humeur permanente,

À Monsieur le **Professeur Denis ANGOULVANT**, pour votre gentillesse, votre disponibilité et votre soutien dans la réalisation de mes projets notamment de Master 2,

À Madame le **Professeur Anne BERNARD**, pour ton expertise échographique indispensable, ta disponibilité malgré un emploi du temps chargé et surtout pour ta gentillesse, ton accueil chaleureux et la confiance que tu nous as accordée,

À Madame le **Docteur Fanny DION**, pour ton expertise en cardiologie congénitale, la confiance que tu m'accordes dans ce domaine et surtout pour ta gentillesse et ton énergie débordante,

À Monsieur le **Docteur Paul NEVILLE**, pour votre gentillesse, votre pédagogie avec de jolis schémas et votre accueil au bloc opératoire,

À Monsieur le **Docteur Bruno LEFORT**, d'avoir accepté d'être mon directeur de thèse et d'avoir longuement travailler avec moi sur ce projet ; merci d'avoir confirmé mon choix de poursuivre dans cette voie, merci pour ta bonne humeur, ton humour et ta grande générosité, et enfin merci d'avoir soutenu le projet de m'accueillir encore quelques années.

Aux cardiologues avec qui je travaille/j'ai travaillé durant mon internat :

Professeur Theodora BEJAN-ANGOULVANT pour cette année de M2 en cours et votre soutien et votre motivation, Professeur Laurent FAUCHIER pour votre aide et votre soutien pédagogique, Dr Nicolas CLEMENTY sans qui les staffs ECG n'auraient pas été les mêmes, Dr Bertrand PIERRE, Dr Bernard DESVEAUX, Jean-Michel CLERC, Dr Fabrice IVANES, Dr Gérard PACOURET, Dr Laurent QUILLET, Dr Christophe SAINT-ETIENNE, Dr Romain PERAUD, ainsi qu'aux médecins du service de cardiologie d'Orléans.

Aux équipes paramédicales, au personnel du laboratoire d'hémodynamique, aux secrétaires de la cardiologie en ne citant personne pour ne pas faire de jaloux.

Aux médecins et au personnel du service de cardiologie pédiatrique : Professeur (émérite !) Alain CHANTEPIE, Dr Nathalie SOULE, Dr Jacques POINSOT, Dr Jean-Marc EL ARID, Nathalie, Caroline et toute l'équipe paramédicale du service. Merci pour accueil et votre gentillesse à tous sans exception !

À mes cointernes de promo avec qui nous sommes restés plus soudés que jamais : Jerem, MattMatt, Marionnette, Thibou, Vincent et Jean !

À mes autres cointernes de cardiologie (devenus vieux et aux plus jeunes également) sans qui les semestres mais surtout les cours de DES n'auraient pas été les mêmes : Carl sans qui je ne serai aujourd'hui probablement pas à Tours, Thibaud, Clémentine, Cécile, Arnaud, Ambroise, Gêrôme, Walid, Alexandre, Charlotte, Flavie, Mathias, Julien, Mathieu, Alex...

À mes cointernes d'autres spécialités que j'ai côtoyés au cours de mes semestres (cardiologie, réanimation médicale et pédiatrie notamment)

À ma famille : Maman +++ et Gennaro mais aussi Philippe, Tata Sylvie, Aurèle, Kevin, Tonton Joël, Fabienne et Clara. Et Adrien évidemment.

À mes amies les plus proches : Jujutte, Clemounz, Hélène, Clairon, Paulion, Luciole, Sofia, Agathe, et encore Marion !

À tous mes amis nantais (et leurs rapportés) sans qui l'externat et les Calpe(s) n'auraient pas été les mêmes, la liste est longue mais ils se reconnaîtront.

Et à toutes les personnes que j'aurai pu oublier... !

Résumé

Stenting des sténoses des branches artérielles pulmonaires en cardiopathie congénitale : une solution efficace sur le long terme ?

Introduction - Les sténoses des branches artérielles pulmonaires (BAP) primaires ou secondaires compliquent la prise en charge des cardiopathies congénitales. La plastie chirurgicale est associée à un taux de ré-intervention de 64% à 10 ans. L'implantation de stents par chirurgie ou par cathétérisme semble une alternative efficace seulement les données à long termes sont limitées. Notre hypothèse est que le pronostic de l'implantation de stents par chirurgie ou cathétérisme dans les sténoses des BAP est bon, permettant une croissance significative des artères pulmonaires en limitant les complications.

Méthode - Nous avons conduit une étude rétrospective observationnelle de cohorte au CHU de Tours. Tous les stents implantés par chirurgie ou cathétérisme dans les BAP avec un suivi de 12 mois minimum et au moins un contrôle angiographique ont été inclus. Le critère de jugement principal était composite, associant la mortalité cardiovasculaire ou une ré-intervention par chirurgie ou cathétérisme pour complication d'un stent ou implantation d'un nouveau stent.

Résultats - Entre Février 2007 et Décembre 2017, 76 stents implantés chez 51 patients ont été inclus (62 par chirurgie, 14 par cathétérisme). A la primo-implantation, l'âge et le poids moyens étaient de 56,3 mois (IQR 65,4) et 17,3 kg (IQR 11,0) respectivement. Les sténoses étaient secondaires dans 68% des cas. Le diamètre minimal moyen des BAP était de 4,1 $\pm$ 2,1 mm (moyenne des Z-scores -4,9 $\pm$ 2,9) et le diamètre moyen de dilatation initiale était de 9,1 $\pm$ 3,1 mm. Durant un suivi moyen de 5,3 ans (étendue 0 – 11,2), la survie sans évènement était de 86,8% (IC 79,6%-94,8%) à 1 an, 71,5% (IC 61,9%-82,7%) à 5 ans et 69,6% (IC 59,6%-81,2%) à 10 ans. Nous n'avons pas retrouvé de facteur pronostique de survenue d'un évènement. Parmi les stents « survivants », le diamètre minimal moyen des BAP à la fin du suivi a augmenté de +4,8 $\pm$ 3,2 Z-scores par rapport au diamètre initial ($p < 0,001$).

Conclusion - Notre étude suggère que l'implantation par chirurgie ou cathétérisme de stents dans les sténoses des BAP pourrait être une bonne alternative à la plastie chirurgicale seule. Une étude à plus large échelle, notamment par la création d'un registre national français, permettrait de conforter ces résultats préliminaires.

Abstract

Stenting of branch pulmonary artery stenosis in congenital heart diseases: an effective long-term solution?

Introduction - Primary or secondary branch pulmonary artery (BPA) stenosis complicates the management of congenital heart diseases. Surgical pulmonary plasty is associated with a high rate of reintervention of 64% at 10 years. As an alternative, percutaneous or intraoperative stents have been implanted to improve efficiency, but limited data are available concerning longterm outcome. We hypothesized that prognosis of intraoperative or percutaneous stent implantation in BPA stenosis is good with further re-expansion and limited complications.

Methods - We conducted a retrospective cohort study at CHU de Tours. All stents implanted by surgery or catheterization in BPA with a minimum follow-up of 12 months and at least one catheterization control have been included. The primary endpoint was composite, combining cardiovascular mortality and surgical or percutaneous reintervention for stent's complication or new stent's implantation.

Results - Between February 2007 and December 2017, 76 stents in 51 patients were included (62 stents implanted by surgery, 14 by catheterization). At the time of implantation, patients had mean age and weight of 56.3 months (IQR 65.4) and 17.3 kg (IQR 11.0) respectively. There was 68.4% of secondary stenosis. Mean BPA minimum diameter was 4.1 ± 2.1 mm (mean Z-score of -4.9 ± 2.9) and mean initial stent diameter was 9.1 ± 3.1 mm. During a mean follow-up of 5.3 years (range 0-11,2), freedom from primary endpoint was 86.8% (CI 79.6%-94.8%) at 1 year, 71.5% (CI 61.9%-82.7%) at 5 years and 69.6% (CI 59.6%-81.2%) at 10 years. No prognostic factors were found in our study. Among surviving stents, mean BPA diameter Z-score at last evaluation was increase of $+4.8 \pm 3.2$ compared to initial diameter ($p < 0.001$).

Conclusion - Our results suggest that percutaneous or intraoperative stent implantation could constitute a good alternative to BPA plasty alone. A larger scale study, including the creation of a French national register, could reinforce these results.

Mots clés

Cardiopathies congénitales ; branches artérielles pulmonaires ; sténose ;
plastie chirurgicale ; stent ; cathétérisme ; endovasculaire ; percutané

Keywords

Congenital heart diseases ; branch pulmonary arteries ; stenosis ; surgical
plasty ; stent ; endovascular ; catheterization ; percutaneous

Table des matières

Abréviations	13
Introduction	14
Méthode	
Design de l'étude	17
Population de l'étude	17
Définitions/Procédures	18
Critères de jugement	22
Analyses statistiques	23
Résultats	
Caractéristiques de la population	24
Critère de jugement principal	25
Critères de jugement secondaires	26
Discussion	
Résumé	29
Comparaison avec la littérature	29
Limites	33
Perspectives	34
Conclusion	34
Tables	35
Figures	37
Bibliographie	44

Abréviations

AHA	American Heart Association
AP	Artère(s) pulmonaire(s)
APSO	Atrésie pulmonaire à septum ouvert
AVC	Accident vasculaire cérébral
BAP	Branches artérielles pulmonaires
CDJP	Critère de jugement principal
CDJS	Critères de jugement secondaires
CHU	Centre hospitalier universitaire
CIA	Communication interauriculaire
CIV	Communication interventriculaire
HR	Hazard ratio
IC95	Intervalle de confiance à 95%
IQR	Écart interquartile (<i>Interquartile range</i>)
IRM	Imagerie à Résonance Magnétique
kg	Kilogrammes
mm	Millimètres
PDS	Produit dose surface
POD	Pressions dans l'oreillette droite
PVD	Pressions ventriculaires droites
SC	Surface corporelle
TAC	Tronc artériel commun
TAP	Tronc de l'artère pulmonaire
TDM	Tomodensitométrie
TGV	Transposition des gros vaisseaux
VD	Ventricule droit
VDDI	Ventricule droit à double issue
VU	Ventricule unique

Introduction

Épidémiologie

Les cardiopathies congénitales représentent près de 1% des naissances^{1,2}. Grâce à l'amélioration permanente des soins médicaux et chirurgicaux, la grande majorité des patients atteints de cardiopathies congénitales arrivent à l'âge adulte. A l'heure actuelle, la population de patients avec une cardiopathie congénitale ne cesse d'augmenter, et comprend maintenant plus d'adultes que d'enfants³. L'enjeu de la prise en charge est de poursuivre l'augmentation de l'espérance de vie, tout en maintenant une qualité de vie satisfaisante.

Sténose des BAP et ses conséquences

La sténose d'une ou des deux branches artérielles pulmonaires (BAP) représente 2 à 3% des cardiopathies congénitales⁴. Leur présentation est très hétérogène. La sténose peut être primaire, isolée ou associée à une cardiopathie (tétralogie de Fallot par exemple) ou à un syndrome génétique (Williams et Beuren, Alagille) ou bien secondaire. Les sténoses secondaires peuvent survenir après une plastie chirurgicale, une anastomose systémico-pulmonaire (intervention de Blalock), une dérivation cavo-pulmonaire (interventions de Glenn et Fontan), après la migration d'un cerclage pulmonaire sur une ou les deux branches ou encore après un switch artériel (manœuvre de Lecompte) ; elles peuvent également être secondaires à une compression externe par d'autres structures. Dans tous les cas, la sténose d'une ou des deux BAP a des conséquences. En l'absence de shunt atrial ou ventriculaire associé, l'augmentation de la post-charge du VD est responsable d'une hypertrophie du VD, avec un risque de défaillance ventriculaire droite, d'arythmies ventriculaires et de mort subite. En présence d'un shunt, le shunt peut s'inverser et devenir droit-gauche (D-G) entraînant une désaturation et ses conséquences (polyglobulie, embolie paradoxale, abcès cérébral...). Par conséquent, la prise en charge de cette anomalie est un enjeu important dans le traitement des malformations cardiaques congénitales.

Prise en charge des sténoses des BAP

Actuellement, l'American Heart Association (AHA) recommande de traiter la sténose d'une BAP lorsqu'elle est significative, c'est-à-dire lorsque le gradient pic à pic est supérieur à 20 mmHg, ou en cas d'obstruction plus distale, lorsque les pressions ventriculaires droites (PVD) sont supérieures à la moitié des pressions systémiques ou bien lorsqu'il existe une asymétrie du débit pulmonaire⁵. Le traitement d'une sténose d'une BAP permettrait d'augmenter le calibre de l'arborisation pulmonaire d'aval⁶, et participerait ainsi à une amélioration hémodynamique, notamment par la diminution des PVD⁷.

Les sténoses des BAP peuvent être traitées soit par la plastie chirurgicale, soit par la mise en place d'un stent, qui sera implanté soit de façon contemporaine à la chirurgie afin d'éviter une resténose, soit par voie percutanée. La chirurgie des sténoses des BAP consiste à réaliser une plastie en sectionnant l'artère pulmonaire (AP) et en la reconstruisant à l'aide de péricarde ou d'un patch synthétique. Il existe cependant un risque de resténose non négligeable. Ainsi, le succès de la plastie chirurgicale des AP a été évalué à 62% à court et moyen terme⁸. A 10 ans, la survie sans ré-intervention pour une récurrence de la sténose après une plastie chirurgicale était encore plus faible, évaluée à seulement 46%⁹. Dans cette étude, les facteurs associés à une ré-intervention étaient les patients opérés en dessous de 1 mois, les sténoses primaires et les sténoses bilatérales des BAP.

Afin de tenter d'améliorer ce taux de resténose, il a été proposé l'implantation peropératoire d'un stent dans les BAP, avec ou sans plastie préalable. Dans certaines études, cette technique hybride est utilisée jusqu'à 40% des cas d'angioplastie des AP¹⁰. Cette procédure a montré dans plusieurs études de bons résultats à court terme^{11,12}, cependant les résultats à plus long terme sont décevants avec un taux de ré-intervention évalué à 60% à 10 ans¹³.

En parallèle à la chirurgie s'est développé le cathétérisme interventionnel, permettant de nombreuses interventions percutanées moins invasives, sans sternotomie et sans nécessité d'anesthésie générale dans certains cas. En 1988, Mullins a réalisé les

premières implantations par voie endovasculaire de stents dans des AP de chiens¹⁴. Les premières implantations de stents dans des BAP chez l'homme ont été réalisées par O'Laughlin en 1991. Le stenting par cathétérisme était alors montré comme efficace et sans complications majeures chez les patients humains atteints de cardiopathies congénitales¹⁵. Cependant, peu d'études ont évalué l'efficacité des stents des BAP sur le long terme.

Un des problèmes majeurs liés à la pose de stent chez les enfants en bas âge, que ce soit par chirurgie ou par cathétérisme, reste la nécessité de redilater régulièrement les stents afin d'adapter leur calibre au gabarit de l'enfant. Des stents redilatables, tels que les stents Genesis® (Cordis, USA), Valeo® (Bard, USA), ou Formula COOK® (Cook Medical, USA)¹⁶ ont ainsi été développés pour permettre ces redilatations itératives. Néanmoins, l'évolution à long terme de ce type de stent n'a pas non plus été étudiée. La redilatation peut s'effectuer par cathétérisme¹⁷ mais il est également possible de l'effectuer par chirurgie lorsque cette dernière est indiquée pour un autre motif¹⁸. Ainsi, l'AHA recommande l'implantation primaire d'un stent pour le traitement d'une sténose significative proximale ou distale d'une BAP seulement quand le rapport vaisseau/patient est suffisant pour accueillir un stent qui pourra être redilaté jusqu'à la taille adulte (Classe I)⁵. Une autre complication fréquemment décrite des stents placés dans les BAP est l'apparition d'une prolifération intra-stent, responsable dans certains cas d'une obstruction sévère nécessitant le retrait chirurgical du stent. Le plus souvent, cette prolifération est traitable par voie endovasculaire par simple redilatation. Cette complication est également peu décrite dans la littérature.

Objectif de l'étude

L'objectif de notre étude était ainsi d'évaluer le devenir à long terme des stents placés dans les BAP par chirurgie ou cathétérisme chez les patients atteints de cardiopathies congénitales. Nous avons fait l'hypothèse que l'implantation de stents dans les sténoses des BAP par chirurgie ou par cathétérisme est associée à un bon pronostic à long terme, avec un taux de complications limité.

Méthode

Design de l'étude

Nous avons conduit une étude observationnelle de cohorte au CHU de Tours. Les patients ont été inclus de manière rétrospective entre février 2007 et décembre 2017. Le suivi a été réalisé jusqu'en mars 2019.

Population de l'étude

Critères d'inclusion

Tous les stents implantés dans les BAP droite ou gauche par chirurgie ou par cathétérisme interventionnel chez des patients atteints de cardiopathies congénitales ont été successivement inclus. Chaque stent a été inclus de façon individuelle, dans le cas où le patient avait bénéficié d'un stent dans chaque branche.

Au moins un contrôle angiographique après la primo-implantation du stent était nécessaire. Le suivi devait être au minimum de 12 mois, sauf dans le cas où le critère de jugement principal intervenait avant 12 mois.

Critères de non inclusion

Les stents implantés chez des patients pris en charge par les associations « Mécénat Chirurgie Cardiaque » ou « La Chaîne de l'Espoir » n'ont pas été inclus, du fait de l'absence de possibilité d'un suivi au long cours.

Les stents implantés dans le tronc de l'artère pulmonaire (TAP) ou dans les branches lobaires n'ont pas été inclus.

Les stents implantés dans une BAP déjà stentée n'ont pas été inclus car la nécessité de réimplanter un stent du même côté était considéré comme un échec du premier stent.

Définitions

Une sténose des BAP était définie comme un rétrécissement de l'AP gauche ou droite au-delà de la bifurcation du TAP et avant la première bifurcation des lobaires. Une sténose des BAP était définie comme primaire lorsqu'elle était présente avant toute intervention. Une sténose des BAP était définie comme secondaire lorsqu'elle était la conséquence d'une chirurgie antérieure sur une BAP, ou d'une compression extrinsèque.

La prolifération intra-stent a été évaluée sur les angiographies par la mesure du rapport entre le plus petit diamètre endoluminal dans le stent et le diamètre du stent. Un rapport inférieur à 0.75 était considéré comme une prolifération significative¹⁹.

Procédures

Primo-implantation d'un stent par chirurgie

Tous les patients ont bénéficié d'une imagerie préalable par angioscanner thoracique ou cathétérisme pour étudier l'anatomie précise de l'arbre pulmonaire et des sténoses. L'éventualité d'implantation d'un stent en peropératoire était décidée en amont au cours d'une réunion de concertation multidisciplinaire (cardiologues congénitaux, chirurgiens cardiaques congénitaux, anesthésistes-réanimateurs) en fonction du profil du patient et des caractéristiques de sa lésion. Cependant, la décision finale du stenting était prise par le chirurgien en peropératoire en fonction de l'anatomie lésionnelle. La première étape consistait à évaluer la dilatation possible de l'AP au diamètre souhaité grâce à un dilateur de Hegar. Si la dilatation n'était pas possible, l'implantation du stent était précédée d'une plastie chirurgicale d'élargissement. Le stent était ensuite positionné sur un guide au niveau de la sténose puis inflaté à l'aide d'un ballon à la pression recommandée. La partie proximale était vérifiée en visualisant directement le stent alors que le bon positionnement de la partie distale était vérifié par palpation, la fluoroscopie peropératoire n'étant pas disponible dans le bloc opératoire. Le stent était ensuite suturé pour éviter toute migration. La majorité des stents utilisés en peropératoires étaient des stents prémontés redilatables Genesis® (Cordis, USA) (sauf dans un cas

où l'implantation d'un stent coronaire a été nécessaire du fait d'une artère trop petite pour admettre un stent Genesis®).

Primo-implantation d'un stent par cathétérisme

Les cathétérismes cardiaques ont été réalisés dans le laboratoire d'hémodynamique et de cardiologie interventionnelle. Toutes les implantations ont été réalisées sous anesthésie générale sauf pour un patient. La voie d'abord était fémorale dans tous les cas. Après avoir mesuré les pressions à tous les étages de la voie droite (POD, PVD, pressions TAP et BAP droite et gauche), des angiographies sélectives des BAP étaient réalisées pour évaluer précisément la ou les sténoses ainsi que la vascularisation distale, à l'aide de sondes NIH® (Cordis, USA) ou Optitorque® (Terumo, USA). Dans certains cas, une dilatation au ballon précédait la mise en place du stent. Après mise en place d'un guide en distalité de la BAP concernée, une gaine était montée en aval de la sténose. Le stent était ensuite monté dans la gaine, puis dilaté au ballon après retrait de la gaine. Un contrôle angiographique était systématiquement réalisé après la mise en place. Les stents implantés par cathétérisme étaient des stents Genesis® (Cordis, USA), Formula COOK® (Cook Medical, USA) ou CP 8 zig® (NuMED, USA).

Redilatation des stents

Les stents redilatables ont été redilatés par chirurgie au cours d'une intervention indiquée pour une autre raison que pour une défaillance du stent, ou par cathétérisme, afin d'adapter le diamètre du stent au gabarit de l'enfant.

Au cours d'une chirurgie, les stents étaient redilatés au ballon Powerflex® (Cordis, USA) sous contrôle de la vue.

Au cours d'un cathétérisme, les stents étaient redilatés au ballon Tyshak® (NuMED, USA) ou Z-Med® (NuMED, USA) dont le diamètre était déterminé en fonction du diamètre de stent post-dilatation souhaité.

Données

Recrutement des patients

Le recrutement des patients implantés de stents par chirurgie a été effectué grâce à la relecture de tous les comptes rendus opératoires depuis décembre 2009. Le recrutement des stents implantés par cathétérisme interventionnel a été effectué grâce à la base de données informatique de la salle de cathétérisme en utilisant les mots clés « dilatation AP », « dilatation artère pulmonaire », « dilatation voie pulmonaire », « dilatation pulmonaire », « sténose pulmonaire », « stents » et « stenting » depuis février 2007.

Recueil des données

Les données de suivi des patients et de leurs stents ont été recueillies de manière rétrospective sur le logiciel informatique (DPP : Dossier Patient Partagé) du CHU de Tours depuis la naissance jusqu'à la fin de la date de suivi en mars 2019. Dans le cas où les patients auraient déménagé, les données de suivi ont été récupérées auprès des autres centres hospitaliers ou auprès des cardiologues ou cardio-pédiatres extrahospitaliers.

Pour chaque patient, les données démographiques (genre, âge, poids, taille), le type de cardiopathie et un éventuel syndrome génétique associé ont été recueillis.

Pour la primo-implantation du stent, la date, les données démographiques (âge, poids, taille), le type d'intervention (chirurgie ou cathétérisme cardiaque), la voie d'abord, l'AP concernée, le type de lésion (primaire ou secondaire), le modèle de stent implanté ainsi que le diamètre du ballon de dilatation lors de la primo-implantation et la présence ou non de complications ont été recueillis. Le diamètre de l'AP avant implantation du stent était recueilli sur un cathétérisme ou sur un scanner thoracique et par défaut sur une échographie cardiaque si les données n'étaient pas disponibles sur les autres examens.

Pour chacune des ré-interventions, la date, les données démographiques (âge, poids, taille), le type d'intervention (chirurgie ou cathétérisme), la voie d'abord, les données angiographiques et hémodynamiques en cas de cathétérisme avant et après une éventuelle dilatation, le diamètre du ballon de dilatation le cas-échant et la présence ou non de complications ont été recueillis. La prescription d'un traitement par antiagrégant plaquettaire après chaque dilatation était également recueillie.

Pour les données angiographiques, le diamètre du stent, le diamètre endoluminal intra-stent témoignant d'une éventuelle prolifération intra-stent, le diamètre minimal de l'AP en aval juste avant la première bifurcation avant et après une éventuelle dilatation du stent ont été recueillis. Les données angiographiques ont été remesurées de manière prospective sur le logiciel PACS (Picture Archiving and Communication System) pour chacun des examens dans la mesure du possible.

Analyse des données

La surface corporelle pédiatrique a été calculé selon la formule « $SC = (4 \times \text{Poids} + 7) / (\text{Poids} + 90)$ ». La surface corporelle adulte a été calculée selon la formule de Boyd « $SC = 0,0001 \times (3,207) \times (\text{Poids}^{0,7285-0,0188\log P}) \times (\text{Taille}^{0,3})$ »²⁰. Le calcul du Z-score a été effectué avec le « Echo Z-score Calculators » d'après la publication de Pettersen et al.²¹.

Critères de jugement

Critère de jugement principal (CDJP)

Le critère de jugement principal était un critère composite associant :

- la mortalité cardiovasculaire, *ou*
- une ré-intervention chirurgicale pour retrait ou section longitudinale du stent faisant suite à une complication liée au stent (migration, fracture, resténose non dilatable, compression coronaire à la redilatation) *ou*
- une ré-intervention par cathétérisme pour mise en place d'un nouveau stent dans la même branche (sténose en aval du stent).

Critères de jugement secondaires (CDJS)

Les critères de jugement secondaires étaient :

- l'évolution du diamètre minimal de la BAP (intra-stent ou en aval du stent),
- les complications liées à l'intervention non incluses dans le critère de jugement principal (prolifération intra-stent, migration non obstructive du stent, fracture non obstructive du stent, échec d'accès ou de redilatation du stent, complications au point de ponction),
- le nombre d'interventions,
- la durée de fluoroscopie et la dose d'irradiation (PDS en cGy.cm²),
- la mortalité toutes causes.

Analyses statistiques

Les données quantitatives ont été synthétisées sous forme de moyennes ou médianes. Les données qualitatives ont été synthétisées sous forme de proportions. La prise en compte des données manquantes a été réalisée par imputation de valeurs fixes. Les comparaisons de moyennes ont été réalisées avec le test de Student, apparié ou non (ou le test de Wilcoxon, apparié ou non, si non paramétrique). Les comparaisons de proportions ont été réalisées avec le test du Chi 2 (ou le test exact de Fisher si non paramétrique).

La probabilité de survie sans évènement a été estimée selon la méthode de Kaplan-Meier. La probabilité de survie sans évènement par groupes a été estimée selon la même méthode en utilisant le test du log rank pour la comparaison des courbes de survie. Une régression de Cox univariée et multivariée a été réalisée pour identifier les facteurs de risque de survenue d'un évènement. Un modèle de fragilité par patient a été ajouté à la régression de Cox pour prendre en compte l'interdépendance de 2 stents chez un même patient. Les variables associées à un évènement dans l'analyse univariée ($p < 0,05$) pouvaient être incluses dans le modèle multivarié.

Toutes les données ont été analysés sur Microsoft® Excel (Version 16.22 – 2019) et le logiciel R (Version 1.1.463 – 2018). Tous les graphiques ont été réalisés sur le logiciel R (Version 1.1.463 – 2018). Une valeur de p inférieure à 0,05 était considérée comme significative. Tous les intervalles de confiance (IC) ont été calculés à 95%.

Résultats

Caractéristiques de la population

Au total, 89 stents ont été implantés chez 57 patients entre février 2007 et décembre 2017 au CHU de Tours. Au final, 76 stents implantés chez 51 patients ont été inclus. Les raisons d'exclusion sont présentées dans le diagramme de flux sur la Figure 1. Les patients ont été suivis jusqu'en mars 2019 inclus.

Sur les 51 patients, il y avait 45,1% de patients de sexe féminin. L'âge moyen et le poids moyen à la primo-implantation étaient de 56,3 mois (IQR 65,4) et de 17,3 kg (IQR 11) respectivement. Environ la moitié des patients (51%) ont été implantés de façon bilatérale. Les cardiopathies congénitales les plus représentées étaient l'atrésie pulmonaire à septum ouvert (APSO) et la tétralogie de Fallot (35,2 et 23,5% respectivement). Un syndrome génétique était présent chez 13,7% des patients, principalement une microdélétion 22q1.1 (syndrome de Di Georges). Une patiente était atteinte d'un syndrome d'Alagille, une maladie génétique rare caractérisée entre autres par des sténoses des BAP périphériques souvent sévères.

Le diamètre minimal moyen des sténoses des BAP mesuré avant la primo-implantation était de 4,1 $\pm$ 2,1 mm, soit une moyenne des Z-scores de -4,9 $\pm$ 2,9 (étendue -14,5 à -1,52). La majorité des sténoses des BAP étaient secondaires à une intervention chirurgicale (68,4%).

Sur les 76 stents implantés, 81,6% ont été primo-implantés lors d'une chirurgie et 18,4% lors d'une procédure de cathétérisme interventionnel. Il y a eu 43,4% des stents implantés dans la BAP droite, 56,5% dans la BAP gauche. Les modèles de stents implantés étaient 68 stents Genesis® (Cordis, USA), 4 stents (5,4%) Formula COOK® (Cook Medical, USA), 1 stent (1,4%) CP 8 zig® (NuMED, USA) et 1 stent coronaire (1,4%). Le diamètre moyen des ballons de dilatation du stent à la primo-implantation était de 9,1 $\pm$ 3,1 mm (étendue 3 – 16).

Les caractéristiques de la population sont synthétisées dans le Tableau 1. Le suivi moyen était de 5,3 ans (étendue 3 jours - 11,3 ans). Le suivi a été supérieur à la médiane de 4,6 ans pour 70,4% des stents.

Critère de jugement principal

Un évènement est survenu pour 22 stents à une durée médiane de 1,1 ans (étendue 3 jours – 5,3 ans). La probabilité de survie sans évènement était de 86,8% (IC95 79,6% - 94,8%) à 1 an, 78,9% (IC95 70,2% - 88,6%) à 2 ans, 71,5% (IC95 61,9% - 82,7%) à 5 ans et 69,6% (IC95 59,6% - 81,2%) à 10 ans. La courbe de survie est présentée sur la Figure 2.

Les causes d'échec d'un stent étaient : mortalité de cause cardiovasculaire (n = 9), ré-intervention chirurgicale pour resténose intra-stent (n = 4), ré-intervention chirurgicale pour retrait d'un stent fracturé (n = 2), ré-intervention chirurgicale pour retrait d'un stent migré obstructif (n = 1), retrait du stent suite à un sus-décalage du segment ST au décours de la dilatation du stent par chirurgie (n = 1), retrait chirurgical immédiat du stent suite à une dissection de l'AP (n = 1), ré-intervention par cathétérisme pour stenting d'une sténose située en aval du stent primo-implanté (n = 2), ré-intervention par cathétérisme pour stenting en aval d'un stent fracturé (n = 1), réintervention par cathétérisme pour stenting suite à une migration obstructive d'un stent (n = 1).

Facteurs de risques associés à la survenue d'un évènement

En régression de Cox univariée, aucun facteur n'était associé à un moins bon pronostic (Tableau 2).

L'analyse de survie par Kaplan-Meier en sous-groupe était en faveur d'une moins bonne évolution sur le CDJP en cas d'âge inférieur ou égal à 12 mois, de poids inférieur ou égal à 8 kg et en cas de dilatation initiale du stent au ballon inférieure ou égale à 7mm. Les courbes de survies sont présentées sur la Figure 3.

Critères de jugement secondaires

Évolution du diamètre minimal de la BAP

Dans le groupe des stents « survivants », le diamètre minimal des BAP (moyenne des Z-scores) était plus grand à la fin du suivi comparé à la primo-implantation (+6,8+/-3,2mm soit +4,8 +/-3,2 Z-scores ; $p < 0,0001$). Les résultats en Z-scores sont présentés sur la Figure 4.

Nombre de ré-interventions

Au total, 247 interventions par chirurgie ou cathétérisme ont été réalisées. Après la primo-implantation, chaque stent a bénéficié en moyenne de 2,25 ré-interventions (étendue 0 – 7). La durée moyenne entre la primo-implantation et la première ré-intervention était de 1,9 ans. La durée moyenne entre chaque ré-intervention était de 2 ans (étendue 0,008 – 8,4 ans).

Durée de fluoroscopie et dose d'irradiation (PDS en cGy.cm²)

Par intervention

La durée moyenne de fluoroscopie par intervention était de 27,4 min (étendue 4,3 – 83 min) pour une durée moyenne d'intervention de 75,3 min (étendue 52,4 – 183 min) soit une durée de fluoroscopie représentant en moyenne 36% de la durée d'une intervention. L'irradiation cumulée moyenne par intervention était de 1441 cGy.cm² (étendue 100 – 5135 cGy.cm²).

Par stent durant toute la période de suivi

La durée moyenne totale des fluoroscopies par stent était de 48,6 min (étendue 4,5 – 149,1 min) pour une durée moyenne totale des interventions par stent de 134,1 min (étendue 22 – 409 min). Au cours de son suivi, un stent a été irradié en moyenne de 2501 cGy.cm² (étendue 100 – 15406cGy.cm²).

Complications liées à l'intervention non incluses dans le CDJP

Prolifération intra-stent

Une prolifération intra-stent a été constatée lors du suivi angiographique pour 15,5% des stents. Une reprise chirurgicale pour prolifération intra-stent n'a été nécessaire que pour une seule patiente avec une resténose importante (rapport 0,18). A noter que cette patiente n'était pas sous antiagrégant plaquettaire après la primo-implantation du stent. Les autres cas de prolifération ont été traités par dilatation percutanée avec une bonne évolution par la suite.

Migration de stents

Il y a eu 2 migrations de stents (2,6%) dont une migration nécessitant la mise en place d'un nouveau stent en aval par cathétérisme.

Fractures de stents

Il y a eu 11 fractures de stents (14,5%). Une ré-intervention chirurgicale ou par cathétérisme pour retrait du stent ou mise en place d'un nouveau stent pour lever la sténose ont été nécessaires pour moins d'un tiers des stents fracturés (27,3%). La majorité des stents fracturés sont restés en place en l'absence de sténose ou de migration.

Échec d'accès au stent et/ou échec de dilatation

Il n'a pas été possible d'accéder et/ou de dilater le stent dans moins de 5% des interventions.

Point de ponction lors des cathétérismes

Un abord veineux fémoral simple a été réalisé dans 54% des cas. Un double abord (artère et veine ou 2 veines) a été réalisé dans 43% des cas. Un triple abord (une artère et 2 veines) a été réalisé dans 3% des cas seulement. Il n'y a pas eu de complications relatives au point de ponction rapportées.

Mortalité toutes causes

Sur les 51 patients, 7 patients sont décédés au cours du suivi. La probabilité de survie à 5 ans était de 85,7% (IC95 73,3% - 96,1%) et est restée stable jusqu'à 10 ans. Tous les décès sont survenus avant 3 ans de suivi post-implantation. Les causes de décès étaient une médiastinite à l'âge de 5 semaines, une défaillance cardiaque sévère à l'âge de 5 semaines, une défaillance cardiaque sévère suite à une mauvaise cardioplogie au cours d'une CEC, un choc septique avec orage rythmique dans un contexte de cardiopathie congénitale complexe multi-opérée, un choc septique sur endocardite bactérienne d'un tube VD-AP et deux décès directement liés au stent (une dissection de l'AP au cours d'une intervention chirurgicale suite à la mise en place du stent dans les premières semaines de vie et une rupture de l'AP suite à une sur-dilatation lors d'un cathétérisme vers l'âge de 3 ans).

Enfin, il faut souligner qu'un adolescent a fait un AVC d'origine embolique au cours d'une CEC responsable de séquelles neurologiques sévères.

Discussion

Dans notre étude, la probabilité de survie des stents implantés par chirurgie ou par cathétérisme dans les sténoses des BAP était proche de 70% à 10 ans. Nous n'avons pas retrouvé de facteur associé de façon statistiquement significative à la défaillance des stents. Néanmoins, les stents implantés chez les enfants de moins de 1 an, d'un poids inférieur ou égal à 8 kg et d'un diamètre de dilatation initiale inférieur ou égal à 7 mm montraient une tendance à une évolution moins favorable.

Comparaison du critère de jugement principal

Les résultats de notre étude sont donc encourageants puisque la survie à 10 ans des stents placés dans les BAP semble supérieure aux survies en cas de plastie chirurgicale. Effectivement, les résultats de la plastie chirurgicale seule sont décevants. Une étude publiée en 1997 avait montré que le taux de succès à court et moyen terme de cette chirurgie était de 62%⁸. Plus récemment, une étude a montré que la probabilité de survie sans ré-intervention pour récurrence de sténose chez les patients opérés d'une plastie chirurgicale sans implantation de stents était seulement de 46% à 10 ans⁹.

En 2018, une étude rétrospective observationnelle sur une cohorte monocentrique a montré que l'implantation par cathétérisme de stents prémontés dans les BAP était efficace à court terme mais nécessitait un taux de ré-intervention chirurgicale sur le stent important évalué à 65% à 5 ans²². Ce résultat en contradiction avec notre étude peut s'expliquer par l'utilisation de stents non redilatables.

Il est intéressant de noter que la durée moyenne de survenue d'un évènement dans notre étude est de 1,4 an, soit un évènement survenant relativement tôt comparé à la durée moyenne de suivi de 5,3 ans. On pourrait ainsi supposer qu'une fois la période critique passée, le stent serait plus susceptible de parvenir à une taille d'AP adulte sans évènement.

Facteur de risque d'échec du stent

Même si les études en sous-groupe montraient une tendance à un moins bon pronostic en cas de stent implanté chez les enfants de moins d'un an, de moins de 8kg et avec un diamètre de dilatation initiale au ballon de moins de 7mm, aucun facteur pronostique de survie n'était statistiquement significatif dans notre cohorte. D'autres études ont retrouvé que l'implantation du stent à un âge inférieur à 2 ans, que l'existence d'une sténose courte et qu'une cardiopathie sous-jacente de type Fallot ou TAC étaient associés à un plus mauvais résultat du stent sur le long terme^{13,22}. Néanmoins, les effectifs relativement faibles avec des populations hétérogènes dans l'ensemble des études publiées ne permettent pas de dégager des facteurs pronostiques clairement identifiés. Leur mise en évidence pourrait pourtant permettre de cibler les populations dans lesquelles l'implantation de stents dans les sténoses des BAP serait la plus bénéfique, ou au contraire contre-indiquée.

Efficacité du stenting des sténoses des BAP

L'implantation de stents dans les sténoses des BAP a permis dans notre étude une croissance significative de la taille des AP (amélioration du plus petit diamètre des BAP de $+6,8 \pm 3,2$ mm, Z-scores à $+4,8 \pm 3,2$ Z-scores, $p < 0,0001$). De façon remarquable, la croissance intra-stent qui n'était possible que par des redilatations itératives s'accompagnait d'une croissance de la BAP qui n'était pas recouverte par le stent ainsi que de l'arborisation pulmonaire d'aval. Cette amélioration du diamètre des BAP par stenting est conforme aux données de la littérature²³. L'évaluation de l'efficacité du stenting sur les paramètres hémodynamiques (notamment par la mesure du rapport PVD/Pression systémique, ou par la mesure du gradient de pression à travers les stents) n'a par contre pas été possible dans notre étude en raison d'un nombre trop important de données manquantes. Le bénéfice hémodynamique du stenting des sténoses des BAP reste de toute façon difficile à évaluer car les BAP ne sont pas les seules structures impliquées dans l'élévation de la PVD. Il peut effectivement s'ajouter une sténose sous-valvulaire ou valvulaire pulmonaire, une sténose sur le tronc de l'AP, des sténoses des branches distales, ou bien même une HTAP qui peuvent majorer la PVD alors que les BAP sont bien perméables.

Contraintes liées à l'implantation de stents

Nos résultats suggèrent donc que le stenting des sténoses des BAP est associé à un taux de survie à long terme tout à fait acceptable et même probablement supérieur à la plastie chirurgicale seule. Néanmoins, la mise en place de ces stents impose leur redilatation progressive par cathétérisme ou par chirurgie lorsqu'elle est indiquée pour une autre raison, afin d'adapter le diamètre du stent à la croissance des enfants. Actuellement, aucune étude ne s'est intéressée à l'augmentation maximale possible sans complication (notamment la dissection ou la rupture de l'artère) à chaque redilatation. Dans notre cohorte, les stents ont été redilatés en moyennes tous les 2 ans de 2 à 3 mm maximum. Une dilatation plus importante pourrait exposer à un risque de complications. Nous avons d'ailleurs eu un décès par dissection de l'AP suite à une redilatation probablement excessive de 4 mm au début de notre expérience.

La durée moyenne entre les ré-interventions de 2 à 3 ans pourrait être considérée comme une durée raisonnable entre les redilatations d'autant plus si cette dernière est effectuée par cathétérisme avec une durée d'hospitalisation en général courte. De même, il faut se rappeler que la redilatation lors d'une chirurgie est faite au cours d'une chirurgie programmée pour une autre indication ; cela n'implique donc pas d'intervention supplémentaire.

En revanche, si le nombre d'intervention pour redilatation paraît acceptable, il est important de noter que les redilatations successives exposent les enfants à une importante irradiation jusqu'à obtention de la taille adulte. En effet, dans notre étude, chaque stent a reçu une irradiation moyenne de 2501 cGy.cm² pour permettre une augmentation de taille suffisante. A cela s'ajoute les radiographies, les scanners et éventuelles coronarographies effectués au cours du suivi. Malheureusement, les rayons ionisants augmentent le risque de cancer. Cohen et al. a montré une association entre l'exposition aux rayons ionisants et le risque de développer un cancer dans une cohorte de plus de 25000 adultes atteints de cardiopathie congénitale. Parmi ces patients, 15,3% d'entre eux avaient développé un cancer avant 64 ans²⁴. De plus, ces patients sont plus à risque de développer les

complications secondaires aux rayons ionisants du fait de leur exposition importante (interventions multiples depuis l'enfance)²⁵⁻²⁷. Dans une étude prospective récente ayant pour objet la stratification du risque d'irradiation selon les procédures de cathétérisme interventionnel dans les cardiopathies congénitales, la mise en place d'un stent dans une BAP faisait partie des interventions à risque moyen (sur une échelle de risques faible, moyen et haut risque). L'irradiation médiane dans cette catégorie était de 131 $\mu\text{Gy.m}^2/\text{kg}$ ²⁸. Une évaluation à long terme des complications liées à l'irradiation dans ces cohortes d'enfants ayant un stent dans les BAP est ainsi absolument nécessaire.

Autres complications des stents

Le taux de prolifération intra-stent était de 15,5% dans notre étude. Cette prolifération a été traitée par redilatation percutanée avec un bon résultat dans plus de la moitié des cas, mais a conduit à une ablation chirurgicale du stent pour une patiente, dont la prolifération était si importante que la dilatation percutanée n'était plus possible. Il est à noter que cette patiente n'avait pas eu d'antiagrégant plaquettaire en prévention de la prolifération pour une raison non mentionnée. Nos résultats rejoignent les données publiées par Hallbergson et al. dont le taux de resténose après stenting par cathétérisme interventionnel était de 24%²⁹.

Nous avons également constaté des fractures de stents dans 11 cas (14,5%), dont 3 ont nécessité une reprise chirurgicale ou un restenting percutané. McElhinney et al. avait retrouvé un taux globalement similaire de 21% de fractures mais avec un taux d'obstruction hémodynamiquement significatif de 80% entraînant 60% de restenting³⁰.

Enfin, nous n'avons pas constaté de complications au niveau des accès veineux fémoraux. Ce résultat encourageant ne limite pas la réalisation de cathétérismes réguliers.

Perspectives

La ou les sténoses des BAP restent une pathologie difficile à traiter de façon définitive. Même si l'implantation de stents dans les sténoses des BAP semble être une bonne alternative à la plastie chirurgicale seule, le nombre de ré-intervention pour redilatation et surtout l'irradiation subie par les patients doit faire considérer une évolution des techniques.

Les stents biorésorbables sont utilisés depuis de nombreuses années pour le traitement des pathologies coronaires. Leur utilisation dans les sténoses des BAP pourrait être une option intéressante et car elle permettrait possiblement d'éviter les redilatations régulières³¹. Cependant, les stents biorésorbables sont pour le moment disponibles uniquement pour des petits diamètres, et leur force radiale n'est pas optimale. Leur efficacité n'a ainsi pas encore été démontrée dans les sténoses des BAP. Les risques liés aux stents biorésorbables seraient possiblement comparables aux stents en métal, notamment un risque de remodelage vasculaire inflammatoire, de bio-incompatibilité vasculaire, d'échec à long terme ou de resténose intra-stent. Enfin, leur développement est toujours en cours. Un modèle adapté aux cardiopathies congénitales et plus particulièrement aux sténoses des BAP est actuellement en phase finale de développement (480 Biomedical Stent Inc®). Il a été conçu pour soutenir la BAP pendant 3 mois puis relâcher son intégrité structurale pour s'adapter à la croissance du vaisseau pendant les 6 mois suivants³².

L'imagerie de fusion pourrait également s'avérer utile au cours des procédures de cathétérisme pour limiter l'irradiation. Cette technique consiste à réaliser une reconstruction tridimensionnelle grâce à une TDM ou une IRM puis à fusionner cette reconstruction avec des images de cathétérisme cardiaque. Elle est utilisée dans plusieurs spécialités et notamment en cardiologie dans les ablations de fibrillation atriale et pour certaines procédures de cathétérisme dans les cardiopathies congénitales. Grâce à l'imagerie de fusion, le temps de fluoroscopie ainsi que les injections de produit de contraste iodé sont diminués^{33,34}.

Limites

Bien que cette cohorte soit rétrospective et de petite taille, elle est comparable en taille aux cohortes existantes sur le sujet et a inclus les stents implantés par chirurgie et par cathétérisme. L'inclusion des stents de façon individuelle dans notre étude, incluant donc parfois deux stents chez un même patient peut poser question mais l'intégration d'un modèle de fragilité permet de prendre en compte statistiquement l'interdépendance de 2 stents chez un même patient. En revanche, la pertinence clinique de cette stratégie est discutable. En effet, si deux stents ont été implantés chez un même patient et qu'un évènement survient pour un seul des deux stents seulement, le patient subira tout de même une ré-intervention. Enfin, notre critère de jugement principal comprenait la mortalité cardiovasculaire toutes causes et a inclus des enfants décédés de leur cardiopathie sans cause directement relative à la mise en place d'un stent dans les BAP. Il est ainsi possible que le taux de survenue d'un évènement lié au stent ait été surestimé.

Conclusion

En conclusion, l'implantation chirurgicale ou par cathétérisme de stents dans les sténoses des BAP paraît être une alternative intéressante à long terme à la plastie chirurgicale seule dans les cardiopathies congénitales. Cela permet une augmentation de la taille des BPA de façon certaine grâce aux redilatations régulières. Une étude à plus large échelle, notamment par la création d'un registre national français des stents placés dans le BAP, permettrait de conforter ces résultats préliminaires.

Tableaux

Tableau 1. Caractéristiques initiales de la population

Total = 51 patients	
Genre, n (%)	
Masculin	28 (54,9)
Féminin	23 (45,1)
Âge en mois, moyenne/médiane	56,3/48,9
Poids en kilogrammes, moyenne/médiane	17,3/13,3
Type de cardiopathie congénitale, n (%)	
T4F	12 (23,5)
APSO	18 (35,2)
TAC	6 (11,8)
VDDI	1 (2)
TGV	4 (7,8)
VU	1 (2)
Autres	9 (17,7)
Syndrome génétique, n (%)	
Délétion 22q1.1	4 (7,8)
Délétion 2q3.7	1 (2)
Alagille	1 (2)
CHARGE	1 (2)
Sténose unilatérale ou bilatérale, n (%)	
Unilatérale	25 (49)
Bilatérale	26 (51)
Total = 76 stents	
Diamètre initial minimal de la BAP, moyenne (étendue)	
Z-score	-4,9 (-14,5 – 1,52)
Type de sténose, n (%)	
Primaire	24 (31,6)
Secondaire	52 (68,4)
Latéralité, n (%)	
Droite	33 (43,4)
Gauche	43 (56,6)
Type de procédure pour la primo-implantation, n (%)	
Chirurgie	62 (81,6)
Cathétérisme	14 (18,4)
Modèle du stent implanté, n (%)	
Genesis® (Cordis, USA)	68 (91,8)
Formula Cook® (Cook Medical, USA)	4 (5,4)
CP 8 zig® (NuMED, USA)	1 (1,4)
Stent coronaire	1 (1,4)
Diamètre du ballon de dilatation initiale en mm, moyenne (étendue)	9,1 (3 – 16)

Tableau 2. Régression de Cox : analyse univariée

Table 3. Régression de Cox		
Variable	Analyse univariée	
	HR (IC95)	p
Âge (par an supplémentaire)	0,92 (0,76 – 1,12)	0,39
Poids (par kg supplémentaire)	0,97 (0,92 – 1,03)	0,29
Technique implantation		
Chirurgie	Référence	
Cathétérisme	2,63 (0,43 – 16)	0,29
Atteinte		
Unilatérale	Référence	
Bilatérale	0,86 (0,12 – 5,99)	0,88
Lésion		
Primaire	Référence	
Secondaire	0,58 (0,08 – 4,23)	0,59
Taille initiale AP (Z-score)	0,96 (0,77 – 1,20)	0,72
Diamètre de dilatation initial	0,83 (0,67 – 1,04)	0,11

HR (IC95) : Hazard ratio avec intervalle de confiance à 95%

*p < 0,05

Figures

Figure 1. Diagramme de flux

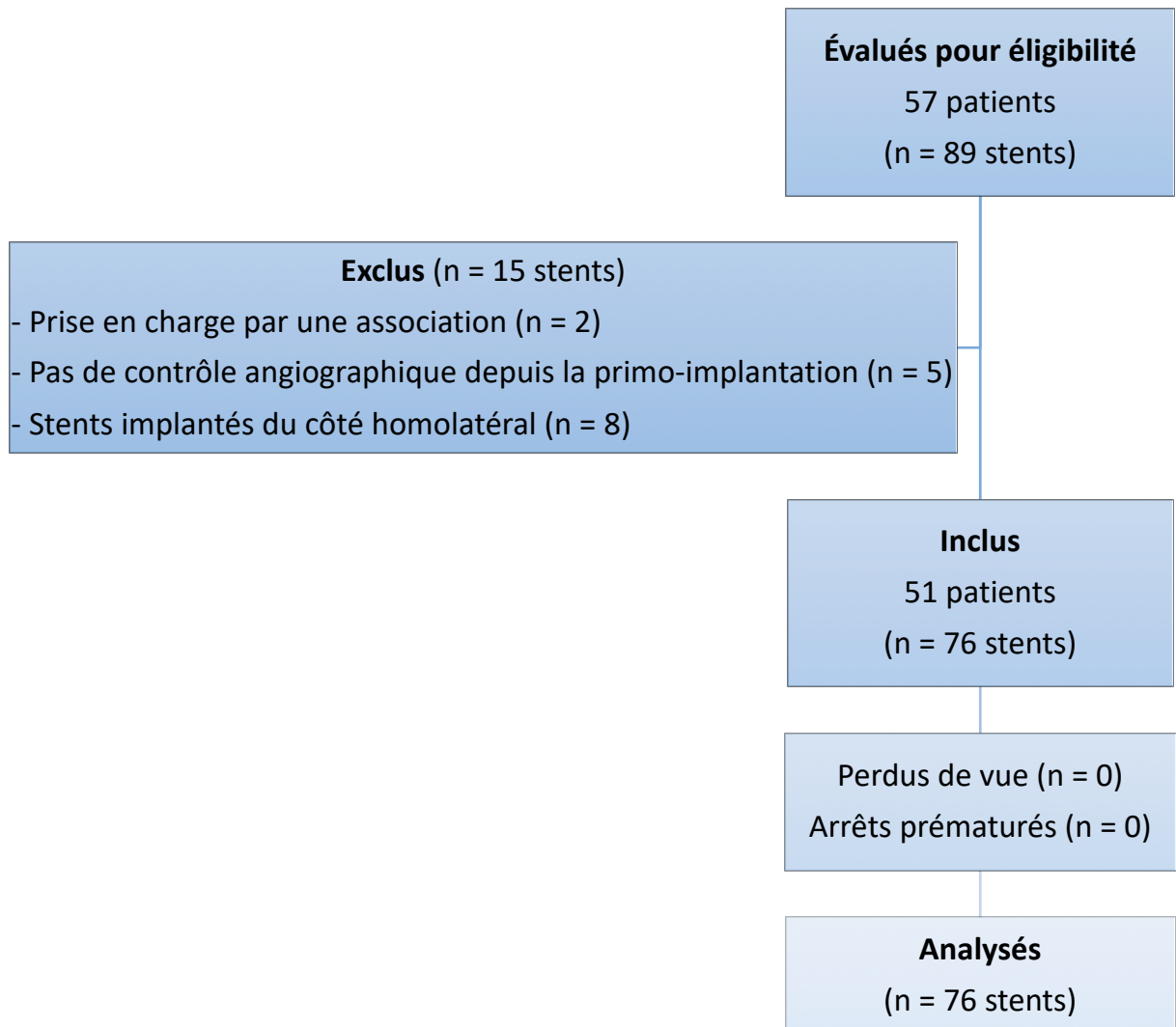


Figure 2. Probabilité de survie sans évènement : tous les stents
(Analyse de survie de Kaplan-Meier)

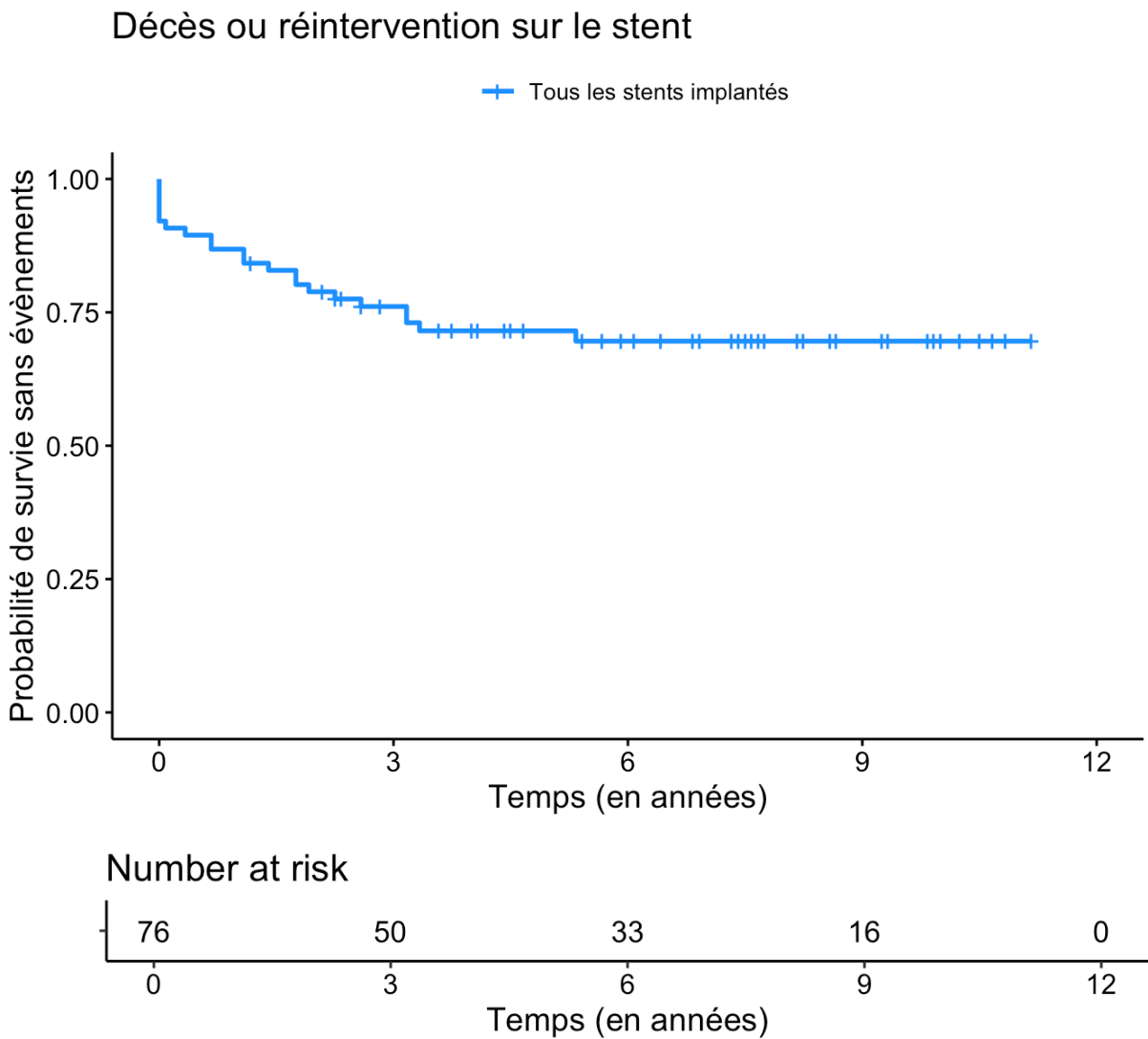
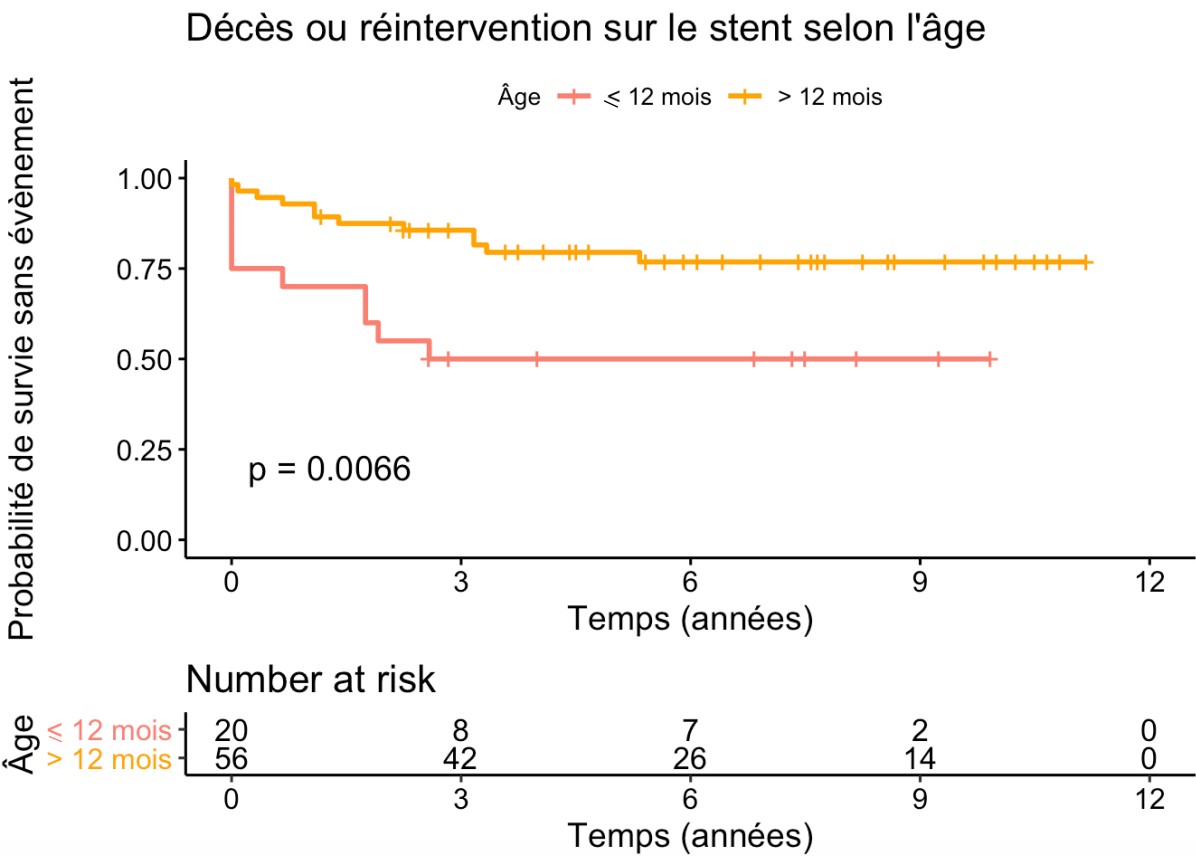
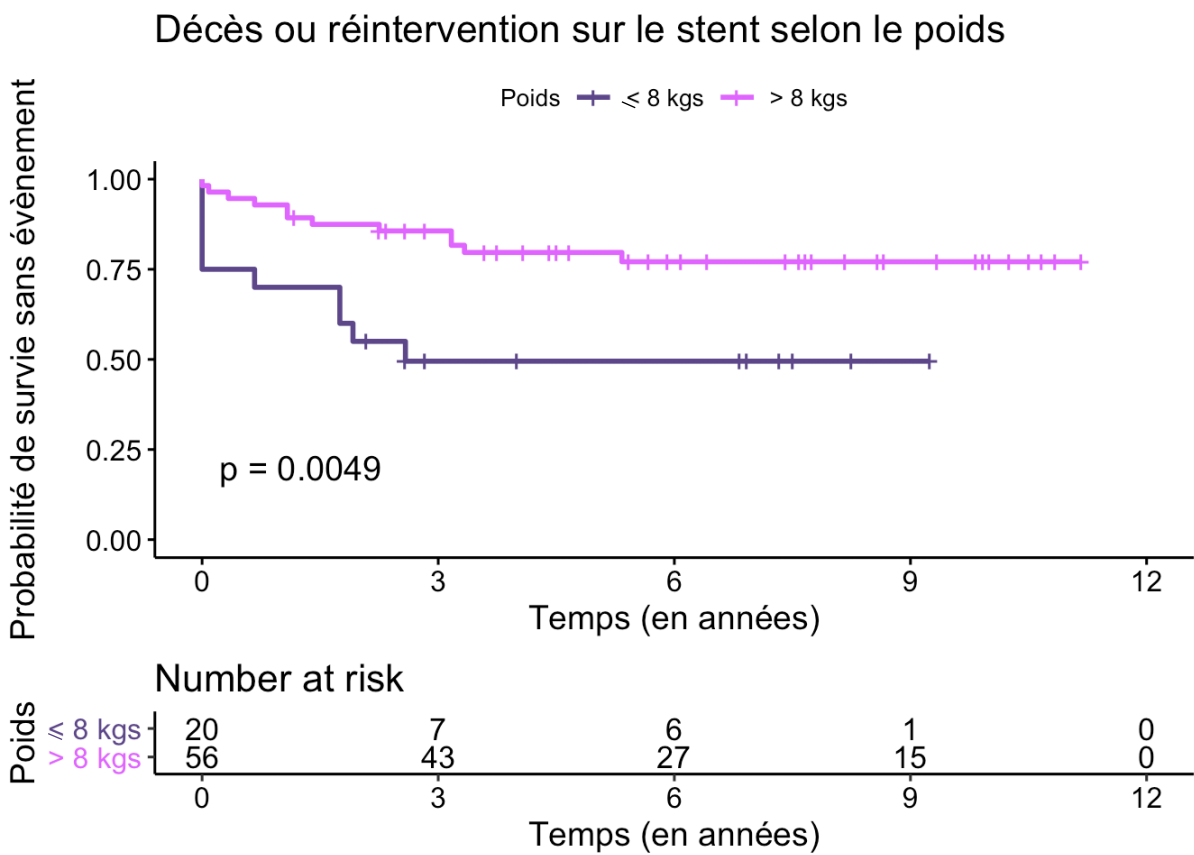


Figure 3. Probabilité de survie sans évènement : sous-groupes
(Analyse de survie de Kaplan-Meier et test du log-rank)

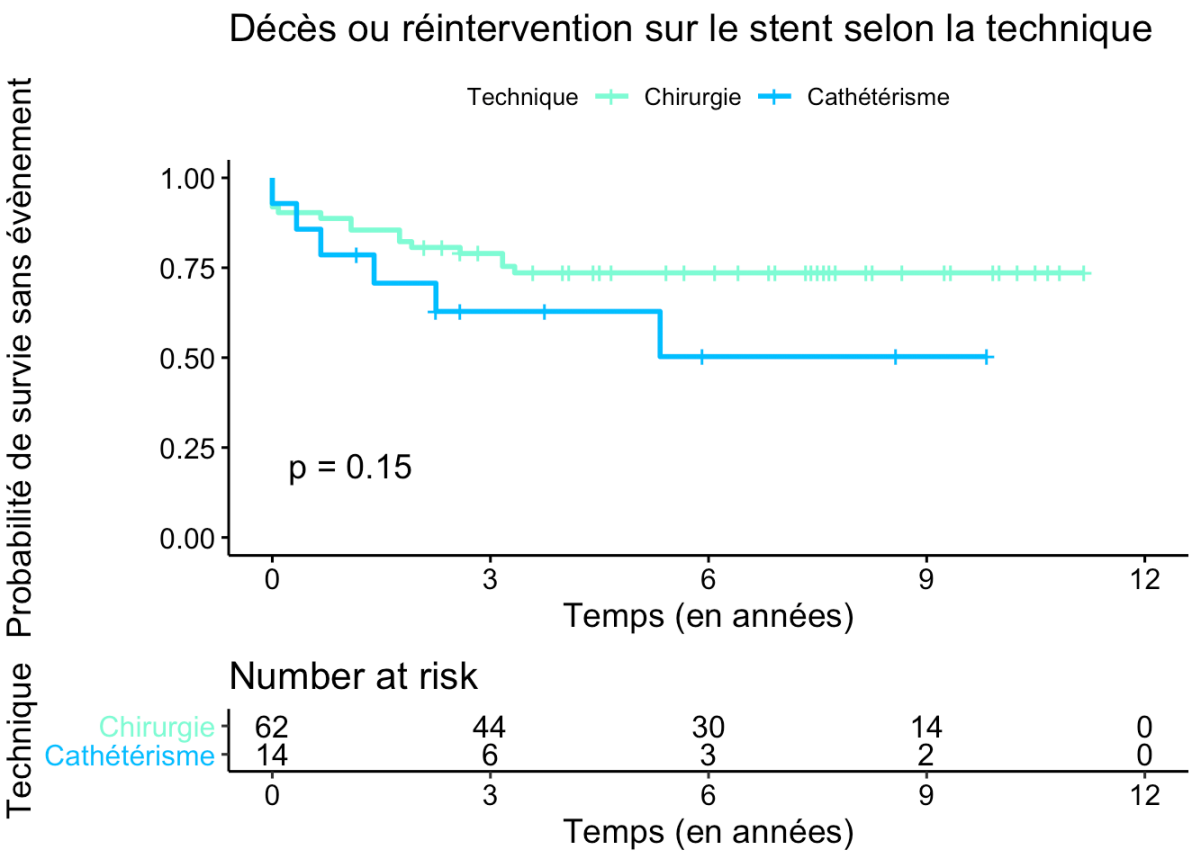
(A) Selon l'âge du patient



(B) Selon le poids du patient



(C) Selon la technique de primo-implantation



(D) Selon le diamètre de dilatation initiale

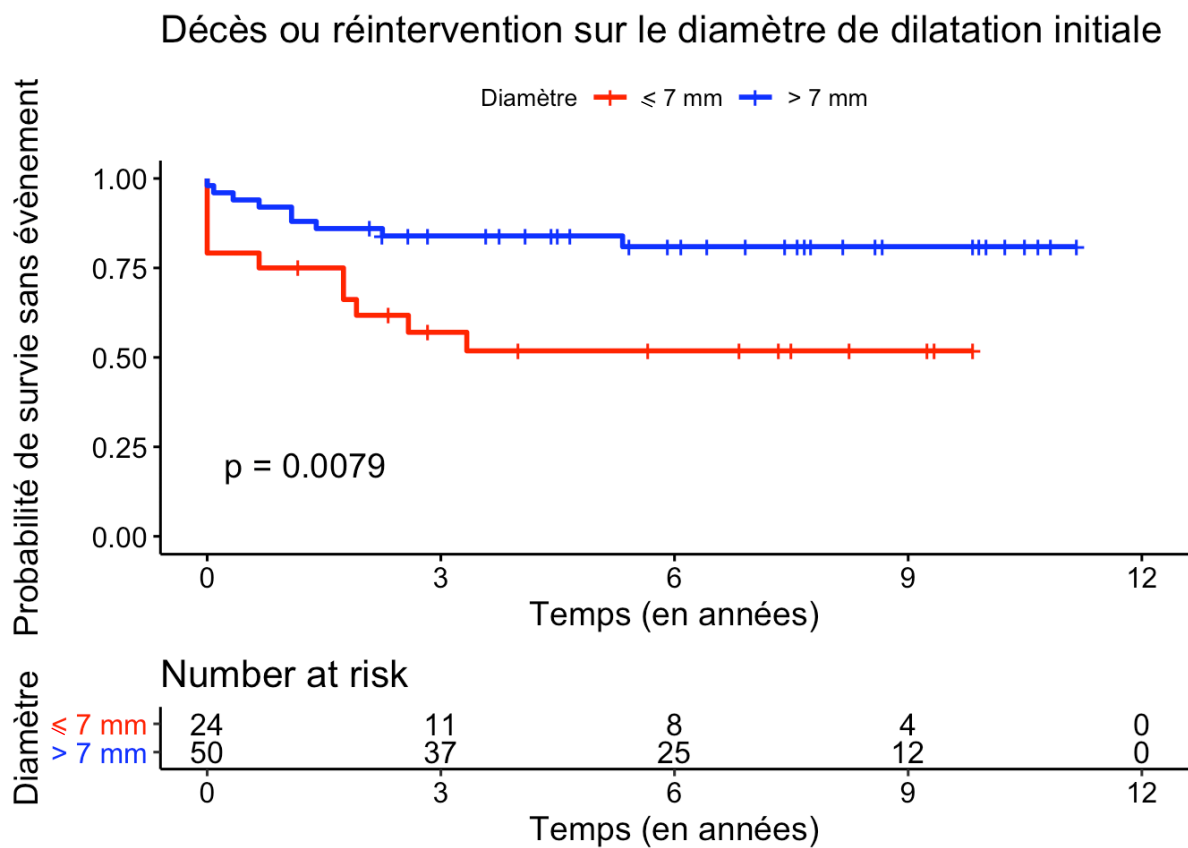
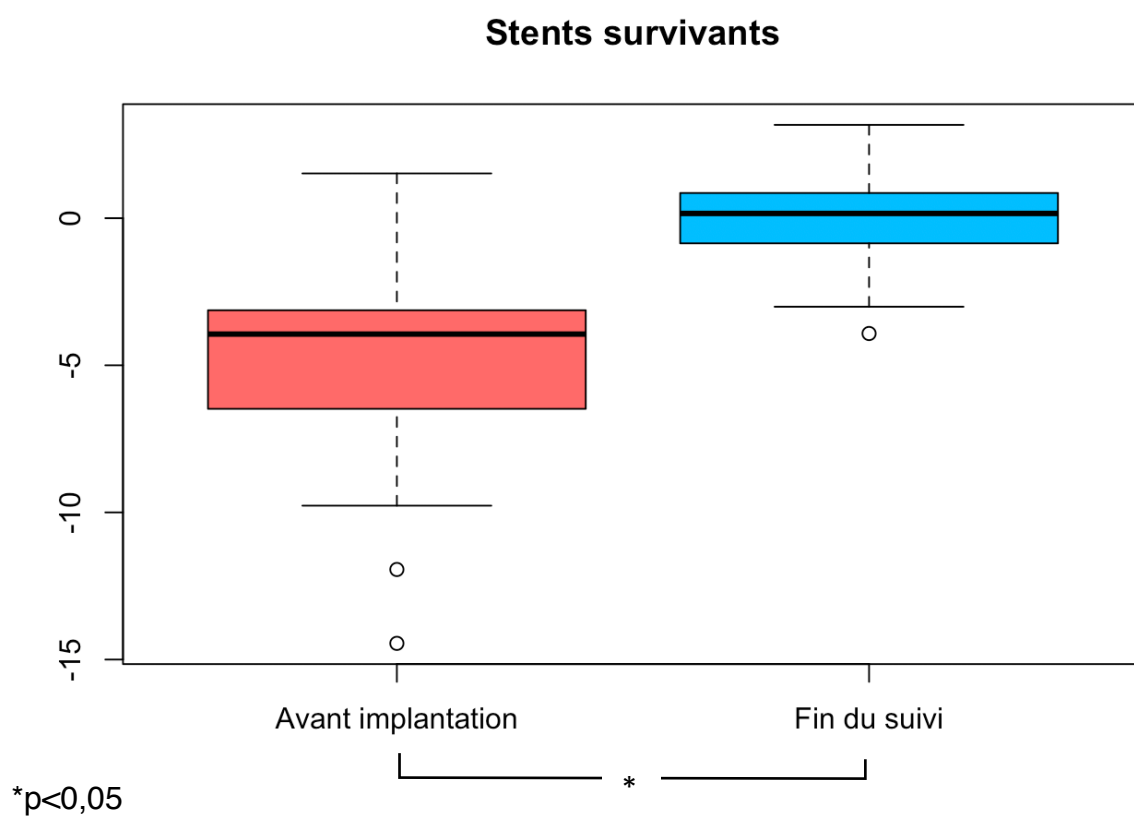


Figure 4. Diamètre minimal des BPA avant implantation et à la fin du suivi parmi les stents « survivants », moyenne des Z-scores (Test de Student apparié)



Bibliographie

1. Hoffman JIE, Kaplan S. The incidence of congenital heart disease. *J Am Coll Cardiol*. 2002;39(12):1890-1900.
2. van der Linde D, Konings EEM, Slager MA, et al. Birth prevalence of congenital heart disease worldwide: a systematic review and meta-analysis. *J Am Coll Cardiol*. 2011;58(21):2241-2247.
3. Khairy P, Ionescu-Ittu R, Mackie AS, Abrahamowicz M, Pilote L, Marelli AJ. Changing Mortality in Congenital Heart Disease. *J Am Coll Cardiol*. 2010;56(14):1149-1157.
4. Vida VL, Rito ML, Zucchetta F, et al. Pulmonary artery branch stenosis in patients with congenital heart disease. *J Card Surg*. 2013;28(4):439-445.
5. Feltes TF, Bacha E, Beekman RH, et al. Indications for Cardiac Catheterization and Intervention in Pediatric Cardiac Disease: A Scientific Statement From the American Heart Association. *Circulation*. 2011;123(22):2607-2652.
6. Takao CM, El Said H, Connolly D, Hamzeh RK, Ing FF. Impact of stent implantation on pulmonary artery growth. *Catheter Cardiovasc Interv Off J Soc Card Angiogr Interv*. 2013;82(3):445-452.
7. Fujii T, Tomita H, Fujimoto K, et al. Morphological and Hemodynamic Effectiveness of Stenting for Pulmonary Artery Stenosis – Subanalysis of JPIC Stent Survey –. *Circ J*. 2016;80(8):1852-1856.
8. Trant CA, O’Laughlin MP, Ungerleider RM, Garson A. Cost-Effectiveness Analysis of Stents, Balloon Angioplasty, and Surgery for the Treatment of Branch Pulmonary Artery Stenosis. *Pediatr Cardiol*. 1997;18(5):339-344.
9. Cresalia NM, Armstrong AK, Romano JC, et al. Long-Term Outcomes After Surgical Pulmonary Arterioplasty and Risk Factors for Reintervention. *Ann Thorac Surg*. 2018;105(2):622-628.
10. Holzer RJ, Gauvreau K, Kreutzer J, et al. Balloon angioplasty and stenting of branch pulmonary arteries: adverse events and procedural characteristics: results of a multi-institutional registry. *Circ Cardiovasc Interv*. 2011;4(3):287-296.
11. Zampi JD, Loccoh E, Armstrong AK, et al. Twenty years of experience with intraoperative pulmonary artery stenting: Intraoperative Pulmonary Artery Stents. *Catheter Cardiovasc Interv*. 2017;90(3):398-406.
12. Meot M, Lefort B, Arid JME, et al. Intraoperative Stenting of Pulmonary Artery Stenosis in Children With Congenital Heart Disease. *Ann Thorac Surg*. 2017;104(1):190-196.

13. Angtuaco MJ, Sachdeva R, Jaquiss RDB, et al. Long-term outcomes of intraoperative pulmonary artery stent placement for congenital heart disease. *Catheter Cardiovasc Interv Off J Soc Card Angiogr Interv*. 2011;77(3):395-399.
14. Mullins CE, O’Laughlin MP, Vick GW, et al. Implantation of balloon-expandable intravascular grafts by catheterization in pulmonary arteries and systemic veins. *Circulation*. 1988;77(1):188-199.
15. O’Laughlin MP, Perry SB, Lock JE, Mullins CE. Use of endovascular stents in congenital heart disease. *Circulation*. 1991;83(6):1923-1939.
16. Hascoët S, Baruteau A, Jalal Z, et al. Stents in paediatric and adult congenital interventional cardiac catheterization. *Arch Cardiovasc Dis*. 2014;107(8-9):462-475.
17. Duke C, Rosenthal E, Qureshi SA. The efficacy and safety of stent redilatation in congenital heart disease. *Heart Br Card Soc*. 2003;89(8):905-912.
18. Law MA, Breinholt JP, Shamszad P, Justino H, Mullins CE, Ing FF. The outcome of pulmonary artery stents following surgical manipulation. *Catheter Cardiovasc Interv Off J Soc Card Angiogr Interv*. 2011;77(3):390-394.
19. Hallbergson A, Lock JE, Marshall AC. Frequency and risk of in-stent stenosis following pulmonary artery stenting. *Am J Cardiol*. 2014;113(3):541-545.
20. Messaï E, Saint-Maurice C. *Guide des chiffres et formules utiles en pratique médicale*. Paris, France: Arnette Blackwell; 1995.
21. Pettersen MD, Du W, Skeens ME, Humes RA. Regression equations for calculation of z scores of cardiac structures in a large cohort of healthy infants, children, and adolescents: an echocardiographic study. *J Am Soc Echocardiogr Off Publ Am Soc Echocardiogr*. 2008;21(8):922-934.
22. Ooi YK, Kim SIH, Gillespie SE, Kim DW, Vincent RN, Petit CJ. Premounted stents for branch pulmonary artery stenosis in children: A short term solution. *Catheter Cardiovasc Interv Off J Soc Card Angiogr Interv*. 2018;92(7):1315-1322.
23. Lewis MJ, Kennedy KF, Ginns J, et al. Procedural Success and Adverse Events in Pulmonary Artery Stenting. *J Am Coll Cardiol*. 2016;67(11):1327-1335.
24. Cohen S, Liu A, Gurvitz M, et al. Exposure to Low-Dose Ionizing Radiation From Cardiac Procedures and Malignancy Risk in Adults With Congenital Heart Disease. *Circulation*. 2018;137(13):1334-1345.
25. Johnson JN, Hornik CP, Li JS, et al. Cumulative radiation exposure and cancer risk estimation in children with heart disease. *Circulation*. 2014;130(2):161-167.
26. Ait-Ali L, Andreassi MG, Foffa I, Spadoni I, Vano E, Picano E. Cumulative patient effective dose and acute radiation-induced chromosomal DNA damage in children with congenital heart disease. *Heart Br Card Soc*. 2010;96(4):269-274.

27. Andreassi MG. Radiation risk from pediatric cardiac catheterization: friendly fire on children with congenital heart disease. *Circulation*. 2009;120(19):1847-1849.
28. Quinn BP, Armstrong AK, Bauser-Heaton HD, et al. Radiation Risk Categories in Cardiac Catheterization for Congenital Heart Disease: A Tool to Aid in the Evaluation of Radiation Outcomes. *Pediatr Cardiol*. 2019;40(2):445-453.
29. Shaffer KM, Mullins CE, Grifka RG, et al. Intravascular Stents in Congenital Heart Disease: Short- and Long-Term Results From a Large Single-Center Experience. *J Am Coll Cardiol*. 1998;31(3):661-667.
30. McElhinney DB, Bergersen L, Marshall AC. In situ fracture of stents implanted for relief of pulmonary arterial stenosis in patients with congenitally malformed hearts. *Cardiol Young*. 2008;18(4):405-414.
31. Shibbani K, Kenny D, McElhinney D, Hijazi ZM, Moran T. Identifying Gaps in Technology for Congenital Interventions: Analysis of a Needs Survey from Congenital Interventional Cardiologists. *Pediatr Cardiol*. 2016;37(5):925-931.
32. Patel AB, Ratnayaka K, Bergersen L. A review: Percutaneous pulmonary artery stenosis therapy: state-of-the-art and look to the future. *Cardiol Young*. December 2018:1-7.
33. Plessis J, Warin Fresse K, Cahouch Z, et al. Value of Image Fusion in Coronary Angiography for the Detection of Coronary Artery Bypass Grafts. *J Am Heart Assoc*. 2016;5(6).
34. Fagan T, Kay J, Carroll J, Neubauer A. 3-D guidance of complex pulmonary artery stent placement using reconstructed rotational angiography with live overlay. *Catheter Cardiovasc Interv Off J Soc Card Angiogr Interv*. 2012;79(3):414-421.

Vu, le Directeur de Thèse

**Vu, le Doyen
De la Faculté de Médecine de Tours
Tours, le**

DOCTORAT en MEDECINE

Diplôme d'Etat

D.E.S. de Cardiologie et Maladies vasculaires

Présentée et Soutenue le 24 juin 2019.

Dépôt de sujet de thèse, proposition de jury,

NOM : MA

Prénoms : Iris, Éléonore

Date de naissance : 7 janvier 1991

Nationalité : Française

Lieu de naissance : PARIS, 75012

Domicile : 14 impasse Palatine, 44200 NANTES

Téléphone : 06 07 50 07 24

Directeur de Thèse : Docteur Bruno LEFORT

Titre de la Thèse : Devenir à long terme après stenting des sténoses des branches artérielles pulmonaires dans les cardiopathies congénitales

JURY

Président : Professeur Dominique BABUTY, Cardiologie, Faculté de Médecine - Tours

Membres :

Professeur Denis ANGOULVANT, Cardiologie, Faculté de Médecine - Tours

Professeur Anne BERNARD, Cardiologie, Faculté de Médecine - Tours

Docteur Fanny DION, Cardiologie, PH, CHU - Tours

Docteur Bruno LEFORT, Pédiatrie, PHU, Faculté de Médecine - Tours

Docteur Paul NEVILLE, Chirurgie Cardiaque Pédiatrique, PH, CHU - Tours

Avis du Directeur de Thèse
À Tours, le 13/05/2019

Signature

Avis du Directeur de l'U.F.R. Tours
à Tours, le 14. 5. 19

Signature

1 Indiquer pour chaque membre du jury : Prénom NOM, Spécialité, Titre (PU/PAMCU-PH...), lieu d'exercice, ville

MA Iris

49 pages – 2 tableaux – 3 figures

Introduction - Les sténoses des branches artérielles pulmonaires (BAP) primaires ou secondaires compliquent la prise en charge des cardiopathies congénitales. La plastie chirurgicale est associée à un taux de ré-intervention de 64% à 10 ans. L'implantation de stents par chirurgie ou par cathétérisme semble une alternative efficace seulement les données à long termes sont limitées. Notre hypothèse est que le pronostic de l'implantation de stents par chirurgie ou cathétérisme dans les sténoses des BAP est bon, permettant une croissance significative des artères pulmonaires en limitant les complications.

Méthode - Nous avons conduit une étude rétrospective observationnelle de cohorte au CHU de Tours. Tous les stents implantés par chirurgie ou cathétérisme dans les BAP avec un suivi de 12 mois minimum et au moins un contrôle angiographique ont été inclus. Le critère de jugement principal était composite, associant la mortalité cardiovasculaire ou une ré-intervention par chirurgie ou cathétérisme pour complication d'un stent ou implantation d'un nouveau stent.

Résultats - Entre Février 2007 et Décembre 2017, 76 stents implantés chez 51 patients ont été inclus (62 par chirurgie, 14 par cathétérisme). A la primo-implantation, l'âge et le poids moyens étaient de 56,3 mois (IQR 65,4) et 17,3 kg (IQR 11,0) respectivement. Les sténoses étaient secondaires dans 68% des cas. Le diamètre minimal moyen des BAP était de 4,1+/-2,1 mm (moyenne des Z-scores -4,9+/-2,9) et le diamètre moyen de dilatation initiale était de 9,1+/-3,1 mm. Durant un suivi moyen de 5,3 ans (étendue 0 – 11,2), la survie sans évènement était de 86,8% (IC 79,6%-94,8%) à 1 an, 71,5% (IC 61,9%-82,7%) à 5 ans et 69,6% (IC 59,6%-81,2%) à 10 ans. Nous n'avons pas retrouvé de facteur pronostique de survenue d'un évènement. Parmi les stents « survivants », le diamètre minimal moyen des BAP à la fin du suivi a augmenté de +4,8+/-3,2 Z-scores par rapport au diamètre initial ($p<0,001$).

Conclusion - Notre étude suggère que l'implantation par chirurgie ou cathétérisme de stents dans les sténoses des BAP pourrait être une bonne alternative à la plastie chirurgicale seule. Une étude à plus large échelle, notamment par la création d'un registre national français, permettrait de conforter ces résultats préliminaires.

Mots clés : Cardiopathies congénitales ; branches artérielles pulmonaires ; sténose ; plastie chirurgicale ; stent ; cathétérisme ; endovasculaire ; percutané

Jury :

Président du Jury : Professeur Dominique BABUTY
 Directeur de thèse : Docteur Bruno LEFORT
 Membres du Jury : Professeur Denis ANGOULVANT
 Professeur Anne BERNARD
 Docteur Fanny DION
 Docteur Paul NEVILLE

Date de soutenance : Lundi 24 juin 2019