Troubles neuropsychologiques graves séquellaires d'un coup de chaleur d'exercice.

A. Leblanc[a], P.-Y. Jonin[a], F. Canini[b], C. Blanchard[a], E. Sagui[c], F. Zagnoli[a].

a Service de neurologie, HIA Clermont-Tonnerre, rue du Colonel Fonferrier – 29200 Brest.
b Institut de recherche biomédicale des armées, Antenne Bretigny/Orge, IMASSA, BA 217 – 91200 Brétigny sur Orge.
c Service de neurologie, HIA Laveran, BP 60149 – 13384 Marseille Cedex 13.

Article reçu le 13 décembre 2010, accepté le 6 septembre 2011.

Résumé

Le coup de chaleur d'exercice est un accident non exceptionnel dans les armées : son incidence annuelle est de 100 cas. La mortalité en a fortement diminué grâce à une meilleure connaissance par les praticiens, la formation des personnels de terrain et une prise en charge adaptée. Toutefois, même si elles sont rares, les séquelles peuvent être invalidantes. Nous rapportons l'observation d'un sujet de haut niveau intellectuel et qui garde des séquelles neurocognitives invalidantes plusieurs années après un coup de chaleur d'exercice sévère. Les données cliniques et l'étude de la littérature conduisent à discuter l'origine cérébelleuse de ces troubles cognitifs.

Mots-clés : Coup de chaleur d'exercice. Diaschisis fronto-cérébelleux. Trouble cognitif.

Abstract

SEVERE NEUROPSYCHOLOGICAL DISORDERS AS A CONSEQUENCE OF AN EXERTION HEATSTROKE.

Every year there are about 100 exertional heatstroke cases in the French Armed troops. The emergency care is in progress and no death has happened the last years. Sequelae are less common but can be disabling. We describe a case of a severe exertional heatstroke with cognitive impairment. We discuss about the cerebellar origin of the trouble and the role of a fronto-cerebellar diaschisis.

Keywords: Cognitive impairment. Exertional heat stroke. Fronto-cerebellar diaschisis.

Introduction.

Le Coup de chaleur d'exercice (CCE) est une entité pathologique potentiellement grave et létale en l'absence de prise en charge immédiate adaptée. Il peut également laisser des séquelles particulièrement sévères, hépatiques, rénales ou neurologiques. Parmi celles-ci, les troubles neurocognitifs peuvent être au premier plan. Même s'ils sont rares, il peut en résulter un handicap définitif qui doit être connu.

Observation.

Un homme, âgé de 24 ans, droitier, sans antécédent pathologique particulier, diplômé d'anglais et de russe, effectuant le stage de nageur de combat, a été victime d'un coup de chaleur d'exercice. Le diagnostic de coup de chaleur est porté devant un malaise avec perte de connaissance et hyperthermie à 39,4 °C, survenu à l'issue de 40 minutes d'une marche course de 8 km effectuée dans une ambiance thermique évaluée à 22 °C, avec une faible hygrométrie (60 %) et en l'absence de vent. Lors de la prise en charge, la pression artérielle (PA) est à 80/40, il existe une oligo-anurie. Malgré les mesures de refroidissement appliquées immédiatement, la température rectale s'est élevée jusqu'à 41,4 °C et la perte de connaissance, accompagnée de convulsions, a duré environ deux heures.

À l'admission aux urgences de l'hôpital le plus proche, 90 minutes après la survenue de l'accident, la température rectale est encore à 39 °C. Les données biologiques (tab. I) initiales révèlent une insuffisance rénale fonctionnelle modérée, régressive en 48 heures, et une cytolyse hépatique qui va s'aggraver dans les premiers jours.

La rhabdomyolyse est restée modérée (Créatine phosphokinase (CPK) à 767 UI/L le lendemain de l'accident, 1 134 UI/L à J3).

A. LEBLANC, médecin lieutenant, interne des HA. P.-Y. JONIN, neuropsychologue. F. CANINI, médecin en chef, professeur agrégé du Val-de-Grâce. C. BLANCHARD, médecin en chef. E. SAGUI, médecin en chef, professeur agrégé du Val-de-Grâce. F. ZAGNOLI, médecin chef des services, professeur agrégé du Val-de-Grâce.
Correspondance : F. ZAGNOLI, Service de neurologie ; HIA Clermont-Tonnerre, rue du Colonel Fonferrier – 29200 Brest.
E-mail : fabien.zagnoli@santarm.fr

Tableau I. Données biologiques à la phase aiguë.

	Urée (mmol/l)	Créatinine (micromol/l)	Clairance de la créatinine ml/mn (selon Cockroft)	ASAT (UI/l)	ALAT (UI/l)	CPK (UI/l)
J0	7,7	150	72	61	52	362
J1	6,8	110	99	479	535	767
J3	5,4	98	110	545	782	1 134
J8	5,8	92	118	76	430	61

Malgré un examen somatique, en particulier neurologique, sans anomalie et la correction des anomalies biologiques, le patient n'a pu reprendre son travail, arguant d'une asthénie physique et psychique, de troubles de la mémoire et de la concentration. Il signale également une faiblesse de l'hémicorps gauche et des céphalées.

Lorsqu'il est vu en consultation, trois ans après l'accident, le patient n'a toujours repris aucune activité professionnelle. Il se plaint de céphalées chroniques, majorées par l'effort physique ou intellectuel, mais surtout de troubles mnésiques (améliorés par l'indiçage), d'une irritabilité et d'une grande apathie. Le patient doit noter tout ce qu'il fait, ce qui n'était pas le cas auparavant. Il dit ne plus pouvoir progresser dans l'apprentissage des langues, éprouver des difficultés pour se concentrer sur ses lectures et ne plus être capable d'analyser des données géopolitiques.

L'examen clinique, met en évidence une lenteur idéatoire et une persévération idéique. Il n'y a pas de trouble phasique, tant en français qu'en anglais, mais une réduction de la fluence verbale. En l'absence de tout déficit moteur ou sensitif, il est noté des difficultés de programmation motrice et un discret de trouble de la coordination, un peu plus marqués à gauche.

L'entourage familial et professionnel précise que le patient était doté d'importantes capacités mnésiques, d'une forte motivation, mais aussi d'un caractère intransigeant avec une tendance à l'irritabilité.

L'évaluation neurocognitive (tab. II) révèle des troubles de l'attention, avec en particulier un ralentissement important de la vitesse de réalisation des tests d'attention sélective (17e centile) et de l'exécution graphomotrice. Les fonctions perceptives et gnosiques (9/19), praxiques et visuo-constructives (8/19) sont altérées en raison d'un ralentissement du traitement de l'information à modalité visuo-spatiale. Les capacités mnésiques sont préservées avec toutefois une discrète altération du rappel libre différé pour le matériel non verbal.

Les fonctions exécutives sont également altérées avec une réduction de la fluence graphique et une faiblesse relative des aptitudes de raisonnement abstrait en modalité verbale et visuelle.

Le test de reconnaissance des émotions faciales est lui aussi déficitaire, en particulier en ce qui concerne la peur (4/10), mais aussi la tristesse (7/10).

L'éveil, la vigilance, l'orientation, les fonctions phasiques et le calcul sont normaux.

La consultation psychiatrique ne met pas en évidence de personnalité pathologique ni de dépression évolutive. Il existe des traits sensitifs majorés par rapport à ceux qui avaient été notés lors de la consultation psychiatrique d'aptitude à la spécialité.

L'IRM encéphalique est sans anomalie.

Le patient se trouve dans l'incapacité de reprendre une activité intellectuelle identique voire inférieure à celle qu'il exerçait auparavant.

Tableau II. Résultats du bilan neuropsychologique (notes standard ajustées selon l'âge).

Fonctions attentionnelles		
Empan verbal numérique	6	
Mémoire de chiffres WAIS-R	13/19	
Barrage signes non structurés	65 sec	
Barrage lettres non structurées	98 sec	1 omission
Vitesse test de Ruff	217*	17e centile
Justesse test de Ruff	98,51	
Traitement test de Ruff	1,224	
Code WAIS-R	15/19	
Fonctions perceptives et gnosiques		
Complément d'images WAIS-R	9/19*	37e centile
Fonctions praxiques et visuoconstructives		
Cubes de la WAIS-R	8/19*	25e centile
Mémoire		
Mémoire verbale 13 mots	Rappel libre immédiat	10-13-13-13/13
Mémoire verbale 13 mots	Rappel libre différé	13/13
Mémoire non verbale 13 dessins	Rappel libre immédiat	9-12-12-13/13
Mémoire non verbale 13 dessins	Rappel libre différé	12/13*
Langage		
Lecture de paragraphes	15	
Calcul		
Arithmétique WAIS-R	14/19	
Fonctions exécutives		
Empan chiffres à l'envers	7	
Stroop lecture	34 secondes	
Stroop Dénomination	53 secondes	
Stroop Interférence	80 sec	
Stroop Flexibilité	87 sec	
Stroop Flexibilté – Inhibition :	7 secondes	
Fluence graphique (Ruff)	67*	< 17e centile
Fluence verbale Phonétique1mn	16	
Fluence verbale Sémantique1mn	17	1 persévération*
Test d'anticipation spatiale Brixton	49/55	
Hayling Test A	13 secondes	
Hayling Test B	2	
Similitudes WAIS-R	9/19*	37e centile
Complément d'image WAIS-R	9/19*	37e centile
Reconnaissance des émotions faciales		
Joie	10/10	
Tristesse	7/10*	
Colère	8/10*	
Dégoût	9/10*	
Peur	4/10*	
Surprise	9/10*	
Quotient Intellectuel WAIS-R		
Verbal	107	
Performance	99	

Discussion.

Le tableau neurologique initial répond à la définition clinique du CCE. Le coup de chaleur d'exercice s'apparente à une encéphalopathie d'effort. Il débute par une véritable anosognosie : le sujet ne perçoit pas les signaux d'alerte (douleur, fatigue, hyperthermie) (1) et dans la plupart des cas poursuit son effort. Apparaît ensuite une obnubilation, qui est le symptôme le plus fréquent suivi d'une confusion. Il est alors constaté des troubles du comportement, une agitation, une agressivité, un état psychique et moteur pseudo ébrieux. Parfois, les troubles de conscience aboutissent au coma. Les convulsions sont plus rares et témoignent de la sévérité de la souffrance cérébrale. Les formes sévères sont définies par une hyperthermie supérieure à 40 °C, la survenue d'une crise comitiale ou d'une perte de connaissance prolongée. Mais dans la majorité des cas, lorsque le refroidissement intervient rapidement, l'accident ne laisse pas de séquelle : il est en effet démontré que ce n'est pas tant le degré d'hyperthermie que la durée de celle-ci qui est délétère (2, 3). Le patient a présenté une hyperthermie élevée (41,4 °C) et durable (2 heures), accompagnée d'une perte de connaissance et de convulsions, ce qui permet de la classer comme un accident sévère.

Outre la défaillance multi viscérale et le décès, le principal risque dans les heures qui suivent un CCE est hépatique : il existe une cytolyse dans tous les cas, maximale au troisième jour avec apparition d'une insuffisance hépatocellulaire parfois fatale (4, 5) nécessitant une transplantation hépatique (6, 7). Dans le cas présent, les transaminases se sont élevées à plus de dix fois la normale, sans troubles de l'hémostase.

Une insuffisance rénale initiale nécessitant une dialyse à la phase aiguë est observée jusque dans 25 % des formes sévères et peut évoluer vers l'insuffisance rénale chronique dans 8 % des cas (8). Dans les formes non sévères, elle est plus rarement rapportée (9-11). Elle ne semble pas corrélée à l'intensité de la rhabdomyolyse avec un taux de créatine phosphokinase qui peut parfois dépasser 10 000UI/L.

L'atteinte cardiaque est elle exceptionnelle (12).

L'apparition d'une coagulation intravasculaire disséminée (8, 13) et/ou d'une hypophosphorémie (14) sont des facteurs de gravité dont la signification pronostique est établie.

Les séquelles neurologiques sont habituellement plus tardives et plus rares. Si classiquement il s'agit plutôt d'une atteinte du système nerveux central, il a été décrit des atteintes périphériques à type de polyneuropathie (15), de polyradiculonévrite (16) ou de neuropathie crurale (17). Divers troubles ont été rapportés : céphalées chroniques (18), hémorragies cérébrales (19) secondaires à une coagulopathie sévère. Mais, comme lors du coup de chaleur classique (20-22), une atteinte cérébelleuse est rapportée dans 28 à 41 % des cas les plus sévères (8).

Les séquelles neurocognitives semblent exceptionnelles (23) : il a été rapporté un cas d'apraxie droite avec dysfonctionnement frontal de type sous-cortical (24), un cas de syndrome de Kluver Bucy (25), trois cas de troubles de l'attention, de la mémoire ou de la personnalité (26) allant d'un stade minime à un stade de démence modérée, et deux cas ayant débuté par une hémiparésie et qui ont conservé comme séquelle une atteinte marquée des fonctions exécutives (27). Toutefois, dans la série de Sithinamsuwan et al. (8) issue de l'armée thaïlandaise, sept cas étaient rapportés parmi 28 sujets trois mois après un coup de chaleur d'exercice, soit 25 % des cas sévères.

Dans cette série, comme chez notre patient, les troubles concernaient principalement les fonctions exécutives, la mémoire de travail, les capacités d'attention, de perception et de concentration. Il en résultait un ralentissement idéomoteur, une labilité émotionnelle et des difficultés d'apprentissage. Il n'y avait par contre pas de troubles de l'humeur et du comportement, mais la majoration d'une irritabilité prémorbide.

Dans le coup de chaleur classique, l'IRM cérébrale met parfois en évidence, à la phase aiguë, sur les séquences T1 et en diffusion, des hypersignaux des noyaux dentelés du cervelet, du corps calleux, de la capsule externe et du thalamus (28, 29) tandis que le TDM peut montrer une perte de la différenciation entre les substances grise et blanche (30).

Dans le coup de chaleur d'exercice, cet examen est rarement réalisé. Il n'a été décrit un infarctus bithalamique dorsomédian que dans un cas (26) au cours duquel l'hyperthermie avait été particulièrement sévère (41,3 °C) et prolongée (5 heures). Par contre, comme c'est le cas dans notre observation, il n'est habituellement pas décrit d'anomalie morphologique lors du scanner ou de l'IRM en cas de troubles cognitifs persistants secondaires au CCE (8, 24, 26), en dehors d'un cas d'atrophie sus-tentorielle diffuse (27).

Les lésions cérébrales et cérébelleuses survenant au cours d'un CCE sont de nature anoxique, les lésions hémorragiques par coagulation intravasculaire disséminée (CIVD) (13, 19) étant rares. Les mécanismes de cette anoxie cérébrale sont complexes. Ils mettent en jeu le syndrome de réponse inflammatoire systémique, l'hypercoagulabilité, le découplage entre l'hyperactivité neuronale constatée expérimentalement et la baisse du débit sanguin cérébral au cours de l'effort (31), le stress oxydatif (2) et enfin la libération des protéines de choc thermique, de cytokines et de monoamines (32). Cette anoxie touche particulièrement les neurones cérébelleux comme le confirme l'examen anatomopathologique des sujets décédés d'un coup de chaleur classique, qui révèle une raréfaction des cellules de Purkinje du cervelet et des voies efférentes. Ces observations sont en faveur d'une sensibilité particulière des neurones de Purkinje à l'hyperthermie. Il semble que les mêmes lésions puissent être observées dans le CCE (31).

Les troubles cognitifs observés chez notre patient, ainsi que dans les autres observations rapportées (8, 24, 26), sont de type sous-cortico-frontal. Toutefois, ni l'expérimentation animale, ni les observations anatomopathologiques (33) n'ont mis en évidence une atteinte directe des lobes frontaux. Il n'y a pas d'argument en faveur d'une atteinte hippocampique ni thalamique. Par contre, la série thaïlandaise de Sithinamsuwan (8) fait apparaitre que près d'un tiers des patients conservent, trois mois après l'accident, un syndrome cérébelleux et/ou des troubles cognitifs séquellaires. Se pose donc la question d'une atteinte du cervelet cognitif : l'atteinte du noyau dentelé dans ses projections vers les noyaux dorsaux médians et intralaminaires du thalamus est à l'origine de troubles cognitifs semblables à ceux d'une atteinte sous cortico-frontale avec altération de la

planification, de la fluence verbale, de l'attention, de la mémoire de travail et de l'organisation visuo-spatiale ainsi que de la capacité d'abstraction. En effet, il existe des connexions réciproques entre néocervelet, aires cognitives et limbiques. Le cervelet régulerait des activités procédurales, linguistiques et émotionnelles (34, 35). Son atteinte provoque un phénomène de diaschisis cérébello-frontal : la lésion d'une structure retentit à distance sur le fonctionnement de l'autre. Une lésion cérébelleuse pouvant alors provoquer ce qu'il est convenu d'appeler un syndrome cognitivo-affectif d'origine cérébelleuse (36).

Conclusion.

Les troubles cognitifs séquellaires d'un coup de chaleur d'exercice sont exceptionnels. L'observation clinique, l'examen anatomopathologique et les données expérimentales ont montré l'atteinte particulière des structures cérébelleuses dans cette circonstance. Ainsi, l'hypothèse d'une origine cérébelleuse au syndrome cognitivo-affectif, parfois observé dans les suites d'un CCE, doit-elle être considérée. Identifier l'origine des symptômes permettra leur prise en charge adaptée et la reconnaissance de leur imputabilité.

RÉFÉRENCES BIBLIOGRAPHIQUES

1. Nybo L. Exercise and heat stress: cerebral challenges and consequences. Prog Brain Res 2007 ;162:29-43.
2. Hsu SF, Niu KC, Lin CL, Lin MT. Brain cooling caused attenuation of cerebral oxidative stress, systemic inflammation, activated coagulation and tissue ischemia/injury during heatstroke. Shock 2006 ;26:210-20.
3. Heled Y, Rav-Acha M, Shani Y, Epstein Y, Moran DS. The « golden hour » for heatstroke treatment. Mil. Med 2004 ;169:184-6.
4. Benois A, Coton T, Peycru T, Maslin J, Dardare E, Abdoul I, et al. Coup de chaleur d'exercice grave et insuffisance hépatique aiguë : difficulté de prise en charge outre mer. Med Trop 2009 ;69:289-92.
5. Ichai C, Ciais JF, Hyvermat H, Labib Y, Fabiani P, Grimaud D. Insuffisance hépatique aiguë mortelle : une complication rare du coup de chaleur d'effort. Ann. Fr. Anesth. Reanim. 1997 ;16:64-7.
6. Saissy JM, Almanza L, Samuel D, Pats B. Transplantation hépatique après coup de chaleur d'exercice avec insuffisance hépatique fulminante. Presse Med 1996 ;25:977-9.
7. Hadad E, Ben-Ari Z, Heled Y, Moran DS, Shani Y, Epstein Y. Liver transplantation in exertional heat stroke : a medical dilemma. Intensive Care Med 2004 ;30:1474-8.
8. Sithinamsuwan P, Piyavechviratanat K, Kitthaweesin T, Chusri W, Orrawanhanothai P, Wongsa A, et al. Exertional heatstroke: early recognition and outcome with aggressive combined cooling – a 12 years experience. Mil Med 2009 ;174:496-502.
9. De Souza AL, Rodrigues C, Sztajnbok J, Andrado I, Romano CC, Duarte AJ, et al. Hypoelectrolytemia accompanied by acute renal failure in exertional heatstroke. Am J Emerg Med 2006 ;24:888-9.
10. Yu FC, Lu KC, Lin SH, Chen GS, Chu P, Gao GW, et al. Energy metabolism in exertional heatstroke with acute renal failure. Nephrol Dial Transplant. 1997 ;12:2087-92.
11. Pattison ME, Logan JL, Lee SM, Ogden DA. Exertional heatstroke and acute renal failure in a young woman. Am J Kidney Dis 1988 ;11:184-7.
12. Rousseau JM, Villevieille T, Schiano P, Lévecque JP, Rouquette I, Brinquin L. Reversible myocardial dysfunction after exertional heat stroke. Intensive Care Med 2001 ;27:328-9.
13. Trujillo MH, Bellorin-Font E, Fragachan CF, Perret Gentil R. Multiple organ failure following near fatal exertional heat stroke. J Intensive Care Med 2009 ;24:72-8.
14. Garcin JM, Bronstein JA, Cremades S, Courbin P, Cointet F. Acute liver failure is frequent during heat stroke. World J Gastroenterol 2008 ;14:158-9.
15. Abouelalaa K, Jault P, Borne M, Vincenti-Rouquette I, Brinquin L. Polyneuropathie périphérique après coup de chaleur. Ann. Fr. Anesth. Reanim 2006 ;25:780-3.
16. Pfeiffer G, Steffen W. Guillain Barre syndrome after heat stroke. J Neurol Neurosurg Psychiatry 1999 ;66:408.
17. Rubio Esteban G, Garcia Guijo C, Romero de la Osa A. Neuropatia del nervio crural producida par un golpe de calor. Med Clin (Barc) 1997 ;109:685.
18. Di Lorenzo C, Ambrosini A, Coppola G, Pierelli F. Heat stress disorders and headache: a case of new daily persistent headache secondary to heat stroke. J Neurol Neurosurg Psychiatry 2008 ;79(S) :610-1.
19. Boersma LV, Leyten QH, Meijer JW, Strubbe EJ, Bosch FH. Cerebral hemorrhage complicating exertional heat stroke. Clin Neurol Neurosurg 1998 ;100:112-5.
20. Bouchama A, Knochel JP. Heat stroke. N Engl J Med 2002 ;346:1978-88.
21. Yaqub BA, Daif AK, Panayiotopoulos CP. Pancerebellar syndrome in heat stroke: clinical course and CT scan findings. Neuroradiology 1987 ;29:294-6.
22. Manto MU. Isolated cerebellar dysarthria associated with a heat stroke. Clin Neurol Neurosurg 1996 ;98:55-6.
23. Royburt M, Epstein Y, Solomon Z, Shemer J. Long term psychological and physiological effects of heat stroke. Physiol Behav 1993 ;54:265-7.
24. Rav-Acha M, Shuvy M, Hagag S, Gomori M, Biran I. Unique persistent neurological sequelae of heat stroke. Mil Med 2007 ;172:603-6.
25. Pitt DC, Kriel RL, Wagner LC, Krach LE. Kluver Bucy syndrome following heat stroke in a 12 year old girl. Pediatr Neurol 1995 ;13:73-6.
26. Romero JJ, Clement PF, Belden C. Neuropsychological sequelae of heat stroke: report of three cases and discussion. Mil Med 2000 ;165:500-3.
27. Axelrod BN, Woodard JL. Neuropsychological sequelae of heatstroke. Int J Neurosci. 1993 ;70:223-32.
28. Lee JS, Choi JC, Kang SY, Kang JH, Park JK. Heat stroke: increased signal intensity in the bilateral cerebellar dentate nuclei and splenium on diffusion – weighted MR imaging. Am J Neuroradiol 2009 ;30:58.
29. Mc Laughling CT, Kane AG, Auber AE. MR imaging of heat stroke : external capsule and thalamic T1 shortening and cerebellar injury. Am J Neuroradiol 2003 ;24:1372-5.
30. Szold O, Reider-Grosswasser IL, Ben Abraham R, Aviram G, Segev Y, Biderman P, et al. Gray-white matter discrimination: a possible marker for brain damage in heat stroke? Eur J Radiol 2002 ;43:1-5.
31. Bourdon L, Canini F, Saissy JM, d'Aléo P, Koulmann N, Aubert M, et al. Le coup de chaleur d'exercice : II Physiopathologie. Sciences et Sport 2003 ;18:241-52.
32. Lin MT. Heatstroke-induced cerebral ischemia an neuronal damage. Involvement of cytokines and monoamines. Ann NY Acad Sci 1997 ;813:572-80.
33. Bazille C, Mergarbane B, Bensimhon D, Lavergne-Slove A, Baglin AC, Loirat P, et al. Brain damage after heat stroke. J Neuropathol Exp Neurol 2005 ;64:970-5.
34. Habas C. Le cervelet : de la coordination motrice aux fonctions cognitives. Rev Neurol 2001 ;157:1471-97.
35. Habas C, Kamdar N, Nguyen D, Prater K, Beckmann C, Menon V, et al. Distinct cerebellar contributions to intrinsic connectivity networks. J Neurosci. 2009 ;29:8586-94.
36. Schmahmann JD, Sherman JC. The cerebellar cognitive affective syndrome. Brain 1998;121:561-79.