

Journal Tunisien

d'Ophthalmologie

Organe d'expression de la Société Tunisienne d'Ophthalmologie



Journal Tunisien
d'Optique

Journal Tunisien d'Ophthalmologie

Organe d'expression de la Société Tunisienne d'Ophthalmologie

Rédacteur en Chef

Pr. Afef Maalej

Comité de Rédaction

Pr. Afef Maalej

Pr. Ahmed Chebil

Comité de Lecture

Pr. Mohamed Ghorbel

Pr. Afef Maalej

Pr. Ahmed Chebil

Dr. Racem Choura

Comité d'Honneur

Pr. Abdelhafidh Kraiem

Dr. Abdelmajid Kammoun

Pr. Ahmed Zayani

Pr. Amel Ouertani-Meddeb

Pr. Amira Trigui

Pr. Fafani Belhadj Hmida

Pr. Hechmi Mahjoub

Pr. Hédi Bouguila

Pr. Ilhem Mili-Boussen

Pr. Imen Zghal

Pr. Ines Malek

Pr. Jamel El Feki

Pr. Khalil Erraies

Pr. Lamia El Fekih

Pr. Leila El Matri

Pr. Leila Nacef

Pr. Mohamed Ali El Afrit

Pr. Mohamed Ghorbel

Dr. Mohamed Zghal

Pr. Moncef Khairallah

Pr. Monia Cheour

Pr. Raja Zhioua

Pr. Riadh Messaoud

Pr. Riadh Rannen

Pr. Saida Ayed

Pr. Salem Gabsi

Pr. Ag. Wafa Turki

Pr. Ag. Walid Zbiba

Pr. Wassim Hmaied

Le Journal Tunisien
d'Ophthalmologie

devient

indexé.

Editorial

Les trous maculaires : Quoi de neuf en 2023 ?

Pr. Afef Maalej

7

Articles originaux

Tomographic prognostic indices for large idiopathic macular hole closure: a prospective study

Abdaoui Mouna*, Zgolli Hsouana, Jabri Ahmed, Ben Abderrazek Atf, Nacef Leila

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

9

Idiopathic large macular holes: management and review of literature

Zgolli Hsouana, Maslah Tarak, Abdelhedi Chiraz*, Mekni Manel, Fekih Olfa, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

13

Surgical outcomes after Inverted Internal Limiting Membrane Flap for Large Idiopathic Macular Hole

Abdaoui Mouna*, Zgolli Hsouana, Jabri Ahmed, Ben Abderrazek Atf, Nacef Leila

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

19

Faits cliniques

Infectious complications of open globe injuries with vegetal intraocular foreign bodies

Zgolli Hsouana, Abdelhedi Chiraz*, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

26

Occlusion de l'artère centrale de la rétine en post-opératoire immédiat de vitrectomie pour décollement de rétine rhégmato-gène

Smaoui Siwar*, Zhioua Braham Imene, Boukari Mejdi, Mokrani Manel, Mili Ilhem, Zhioua Raja

Service d'Ophthalmologie, Hôpital Charles Nicolle, Faculté de Médecine de Tunis, Université de Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

31

Traumatic sub-macular hemorrhage: favorable spontaneous course

Zgolli Hsouana, Abdelhedi Chiraz*, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

34

Uveitis revealing coeliac disease : a case report

Abdaoui Mouna*, Ben Abderrazek Atf, Jabri Ahmed, Khallouli Asma, Maalej Afef, Rannen Riadh

Department of Ophthalmology, Military Hospital of Tunis, Tunis, Tunisia

37

Exophtalmie progressive révélant un neuroblastome : à propos d'un cas

Wafa Ammari^{1,3}, Sahar Maaloul^{1,3}, Asma Zaghdoudi^{1,3}, Racem Choura⁴, Sameh Mbarek^{1,3}, Molka Khairallah^{1,3}, Hechmi Ben Hamouda^{2,3}, Anis Mahmoud^{1,3}, Riadh Messaoud^{1,3}

¹ Service d'Ophthalmologie, CHU Taher Sfar Mahdia 5100, Tunisie.

² Service de Pédiatrie, CHU Taher Sfar Mahdia 5100, Mahdia

³ Faculté de Médecine de Monastir, Université de Monastir, Monastir, Tunisie.

⁴ Faculté de Médecine de Tunis, Université de Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

40

Les décollements postérieurs du vitré hémorragiques : Prise en charge et revue de la littérature

Abdelhedi Chiraz*, Zgolli Hsouana, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila

Service A, Institut Hédi Raies d'Ophthalmologie (Tunis, Tunisie)
Faculté de Médecine de Tunis, Université Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

44

Revue générale

Le syndrome du compartiment orbitaire

Abdelhedi Chiraz*, Kammoun Sonda, Gargouri Salma, Trigui Amira

Service d'Ophthalmologie, CHU Habib Bourguiba, Faculté de Médecine de Sfax, Université de Sfax, Sfax, Tunisie

49



Chers lecteurs,

La rétine est la membrane qui recouvre le fond de l'œil. Elle reçoit l'image que nos yeux regardent. Les images qui parviennent à la rétine sont ensuite transférées au cerveau. La macula est la zone centrale de la rétine qui offre la meilleure vision. Elle permet la visualisation des images avec une grande précision et de percevoir les couleurs.

L'altération des couches rétinienne centrale maculaire entraînent donc un trou noir central, motif de consultation fréquent en ophtalmologie. Ce 'scotome' central indique le plus souvent une pathologie de l'interface vitreo-rétinienne. Le diagnostic de trou maculaire, du pseudo-trou ou de trou lamellaire repose essentiellement sur l'OCT. Si un trou est objectivé, l'OCT permet de mesurer son diamètre et d'évaluer l'épaississement des bords ainsi que l'éventuelle présence de logettes d'œdème à leur niveau.

La classification des trous maculaire a connu d'importantes mises à jour permettant de le classer en 4 stades. Cette stadification permet de guider la conduite à tenir.

Les principes de traitement chirurgical sont connus depuis 1991. Ils reposent sur la vitrectomie à trois voies avec tout d'abord la création du décollement postérieur du vitré, ensuite le pelage d'une éventuelle membrane épirétinienne associée et de la limitante interne, enfin un tamponnement interne par gaz.

De nos jours, avec l'avènement des voies 27 et 30 Gauges, les techniques de la chirurgie du trou maculaire ont évolué. On recense plus d'une dizaine de manœuvres chirurgicales de plus en plus fines : Flap de limitante interne en 2010, et sa variante le flap temporal, greffe de rétine autologue en 2016, et la greffe de membrane amniotique en 2019.

Ce numéro du journal Tunisien d'ophtalmologie regroupe trois articles qui discutent entre autres de la prise en charge des trous maculaires idiopathiques larges ainsi que les facteurs pronostiques de récupération visuelle post-opératoire sur les coupes tomographiques. Enfin, et grâce à toutes ces avancées, nous pouvons dire que la chirurgie des trous offre de nos jours des résultats anatomiques et fonctionnels très satisfaisants.

J'espère que la lecture des articles qui constituent ce numéro vous sera utile et agréable.

Je vous souhaite à tous une bonne lecture !

Professeur Afef MAALEJ
Rédacteur en chef

ARTICLE ORIGINAL

Tomographic prognostic indices for large idiopathic macular hole closure: a prospective study

Abdaoui Mouna*, Zgolli Hsouna, Jabri Ahmed, Ben Abderrazek Atf, Nacef Leila.

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

Keywords

Macular hole, Optical Coherence Tomography, Macular hole closure.

Abstract

Purpose. The study aims to determine the prognostic value of spectral domain Optical Coherence Tomography (SD-OCT) in anatomical closure of large idiopathic macular hole (IMH) after surgery.

Methods. The study included 40 patients with large IMH who underwent MH surgery between January and September 2020. The inclusion criteria required patients to have a minimum of 9 months follow-up after primary MH repair surgery for a large IMH. Patients with secondary MHs or additional ocular diseases that could impact visual acuity, as well as patients with low-quality OCT images, were excluded. The patients underwent a comprehensive eye examination, color fundus photography, and OCT at baseline, 3 months, 6 months, and 9 months after surgery. The SD-OCT parameters measured included minimum diameter, base diameter, macular hole height, hole form factor (HFF), macular hole index (MHI), diameter hole index (DHI), tractional hole index (THI), macular hole angle, and macular hole area index (MAI).

Results. Univariate and multivariate regression analyses demonstrated that minimum diameter, THI, and MAI were significantly correlated with anatomical success, with THI being the most important index in predicting hole closure.

Conclusion. These findings suggest that SD-OCT parameters can be useful predictors of the outcome of MH repair surgery. Further studies are required to study these indices.

Introduction

The idiopathic macular hole (IMH) is a rare condition that causes a complete interruption of all retinal layers at the foveola, leading to a profound impairment of central vision. The pathophysiology involves tangential and anteroposterior traction due to incomplete posterior vitreous detachment [1]. Optical coherence tomography (OCT) is the gold standard for diagnosing and managing IMH, providing measurement of diameter and vitreoretinal interface analysis to guide surgical intervention. Additionally, recent research has emphasized the prognostic value of OCT by measuring several tomographic indices. Patients with large macular holes have poorer surgical outcomes, but various techniques, such as inverted internal limiting membrane (ILM) flap techniques, have been proposed to improve success rates [2]. The aim of this study was to evaluate correlation of various spectral domain optical coherence tomography (SD-OCT) parameters with anatomical outcomes after large IMH repair surgery with inverted ILM flap technique.

Methods

A prospective descriptive study was conducted, which included 40 patients diagnosed with large IMH who underwent MH surgery between January and September 2020. Inclusion criteria consisted of patients who underwent primary MH repair surgery for a large IMH and had a minimum of 9 months follow-up. Exclusion criteria included subjects with secondary MHs or additional ocular diseases that could impact visual acuity, well as patients with low-quality OCT images. All patients underwent a comprehensive eye examination, including best-cor-

rected visual acuity (BCVA) testing (The BCVA was assessed using Snellen's chart and was converted to logarithm of the minimum angle of resolution (logMAR) for statistical analysis), dilated fundus examination with slit-lamp biomicroscopy, color fundus photography, and OCT at baseline, 3 months, 6 months, and 9 months after surgery.

Spectral Domain OCT

OCT images were obtained using the Spectral Domain Spectralis™ OCT (Heidelberg Engineering®, Heidelberg, Germany) after pupil dilation with 0.5% Tropicamide and 10% Phenylephrine drops. A dense mode scan of the macular cube was performed with B scans passing through the entire surface of the MH. The scan with the maximum MH diameter was analysed to measure diameters and tomographic indices.

The data extracted from the SD-OCT scans included the presence of epiretinal membrane (ERM), cystic edges at the macular hole, and retinal pigment epithelium (RPE) proliferations. ERM was defined as the first hyper-reflective line internal to the ILM if present. Cystic edges were identified if intraretinal cystoid spaces were present at the edges, and preoperative RPE proliferations corresponded to hyperreflective protrusions above the RPE line in the macular hole.

Measurements

The preoperative OCT images was exported as a 1008 × 596 pixel resolution JPEG (Joint Photographic Experts Group) file to ImageJ (Open source software- version 1.52). A scale of 17 pixels per 200 microns was set.

After being selected with the "straight line" tool, the following parameters were measured with the "analysis/measure" function

*Corresponding author

Mouna Abdaoui

e-mail: drabdaouimouna@gmail.com

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

- Minimum diameter between edges
- Maximum diameter at base
- Left and right arm's length.
- Macular hole height

From these measurements, the following indices were derived [3,4,5]:

- Hole form factor (HFF) = (right arm length + left arm length)/ maximum base
- Macular hole Index (MHI) = height/maximum diameter
- Diameter hole index (DHI) = minimum diameter/maximum diameter
- Tractional hole index (THI) =height/minimum diameter
- Macular hole angle was defined by the angle between the nasal or temporal arm and the maximum basal diameter. Using the « angle tool » in Image J right and left macular hole were measured. Average of nasal and temporal angle was used for analysis [6].
- Macular hole angle = (right macular hole angle + left macular hole angle)/2

Using the polygonal tool, the macular hole area and the total area with include the area of intraretinal fluid and the macular hole at centre, were calculated (**Figure 1**).

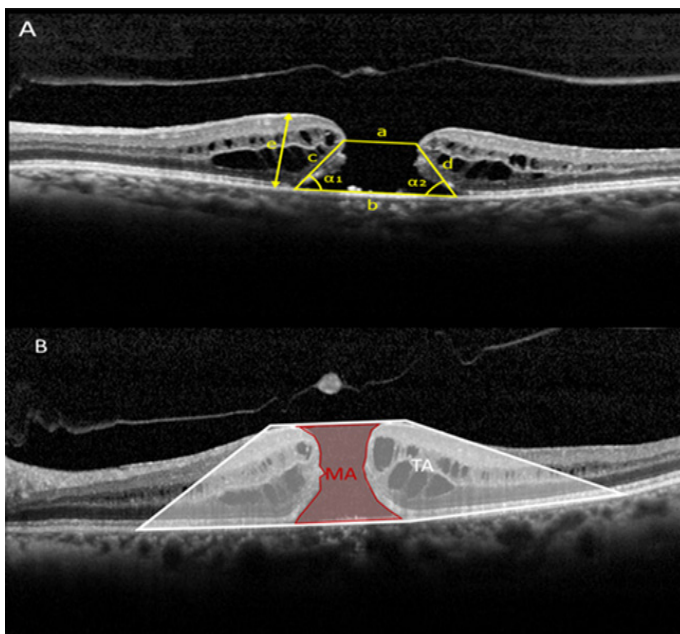


Figure 1. Optical coherence tomography scan measurements. (A) a. minimum diameter; b. maximum diameter; c,d: right and left arm; e: height; α_1, α_2 : macular hole angle. (B) MA: macular hole area; TA: total area.

From these measurements, the following indice was derived [3]:

- Macular hole area index (MAI) = macular hole area/ total area
- Macular hole surgery.

All patients underwent 23-gauge pars plana vitrectomy with inverted ILM-flap technique using Brilliant Blue Green dye and sulphur hexafluoride (SF₆) 20% gas tamponade by the same well-experienced vitreoretinal surgeon between January and September 2020 (**Figure 2**).

Follow up outcomes

All patients underwent a complete eye examination with SD-OCT scans at 1, 3, 6 and 9 months after the surgery.

Anatomical outcomes

Topographic closure of the MH was defined as the restoration

of all or part of the retinal layers above the pigment epithelium in a continuous or discontinuous manner.

We defined failure of closure as the lack of restoration of continuity between the two edges of the MH.

In our study, the patients were divided into two types of anatomical outcomes

- Type1: patients with MH closure.
- Type 2: patients without MH closure.

Statistical analysis

The data collected were analysed using SPSS software version 26. For quantitative variables difference between the 2 groups were analysed using the Mann-Whitney test, while the Chi-square Test was used for qualitative variables. Multivariate analysis was performed using logistic regression analysis.

Results

In this prospective study, 40 patients with large IMH who underwent MH repair surgery were included, resulting in 40 eyes being analysed. The mean age of the study patients was 65.97 ± 4.7 years, with 13 men and 27 women (sex ratio of 1:2). At presentation, all patients complained of diminution of vision, with 27 patients reporting central scotoma and 10 patients reporting metamorphopsia. The mean duration of symptoms was 7 ± 2.5 months, and the mean baseline BCVA was 1.26 ± 0.35 LogMAR. The MH closure rate after surgery was 90% (36 eyes). The mean BCVA at postoperative 9 months was 0.69 ± 0.42 LogMAR. On SD-OCT examination at baseline, ERM was present in 3 eyes, and cystic edges were present in 36 eyes. RPE proliferations on SD-OCT were present in 35 eyes. The mean minimum diameter was $655.48 \pm 167.16 \mu$, the mean base diameter was $1290.15 \pm 369.21 \mu$, the mean macular hole height was $1218.43 \pm 309.77 \mu$, the mean macular hole angle was $65.66^\circ \pm 7.3^\circ$, the mean total area was $3.481 \pm 1.588 \text{ mm}^2$, and the mean macular area was $1.014 \pm 0.415 \text{ mm}^2$. The derived macular hole indices were as follows: mean HFF was 1.334 ± 0.440 , mean MHI was 0.998 ± 0.321 , mean THI was 2.033 ± 0.778 , mean DHI was 0.517 ± 0.115 , and mean MAI was 0.295 ± 0.052 . Complete recovery of the external limiting membrane and ellipsoid zone was observed in 83% and 64% of the patients, respectively, 9 months after surgery.

Univariate and multivariate regression analyses were conducted to determine the relationship between the various parameters and hole closure. Only minimum diameter, THI, and MAI were found to be significantly correlated with anatomical success ($p=0.032$, $p=0.013$, $p=0.042$, respectively). The larger the size of the hole, the higher the risk of non-closure, and the higher the MAI value, the higher the risk of closure failure. However, a positive correlation was found between the THI and the anatomical success of the surgery (**Tables I, II, III**) (**Figure 2**).

Of the three SD-OCT parameters, THI was found to be the most important index in predicting hole closure.

Discussion

The first study to use OCT to analyse MH preoperatively was published by Ip et al in 2002 [7]. Since then, various studies have been published describing the role of analysing quantitative and qualitative parameters predicting the anatomic closure following MH repair surgery.

In our study, we noted a negative correlation between the size of the MH and the closure rate after surgery ($p=0.032$). In a study involving 258 eyes, Soon Wang et al. [2] considered a threshold value of minimal diameter $< 630 \mu$ to predict macular hole closure after vitrectomy and ILM peeling. The authors noted a hole closure rate of 94% for a minimal diameter between 400μ and 650μ , and 76% for holes larger than 650μ . For this reason

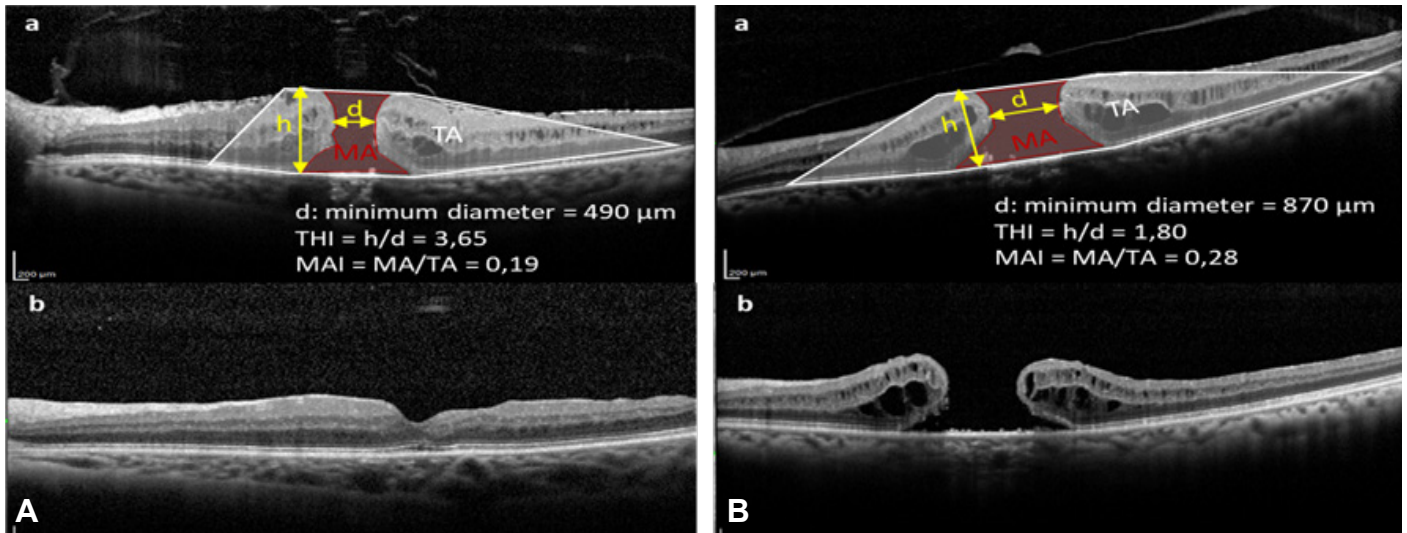


Figure 2. Minimum diameter, Tractional hole index (THI) and macular hole area index (MAI) in two different cases of macular hole. (A) (a) preoperative SD-OCT image of a 69-year-old patient showing an idiopathic full-thickness macular hole with minimum diameter = 490 μm, THI=3.65 and MAI=0.19. (b) an SD-OCT image obtained 9 months after surgery showing anatomical closure of the macular hole. (B) (a) preoperative SD-OCT image of a 65-year-old patient showing an idiopathic full-thickness macular hole with minimum diameter = 870 μm, THI=1.80 and MAI=0.28. (b) an SD-OCT image obtained 9 months after surgery showing unfavourable anatomical outcome.

Table 1. Correlation between macular hole parameters and anatomical outcomes (group 1 with macular hole closure and the group 2 with macular hole non-closure).

Germes	Nombre d'yeux	Pourcentage (%)	p
MD (μm)	602	756	0,210
BD (μm)	1285	1306	0,783
Height (μm)	1224	1202	0,951
THI	2,05	2	0,406
DHI	0,51	0,54	0,508
MHI	1,01	0,96	0,580
HFF	1,38	1,2	0,424
MA (mm²)	1,018	1,002	0,783
TA (mm²)	3,562	3,200	0,432
MAI	0,29	0,3	0,794
MH angle (°)	65,73	65,45	0,667

MD: minimum diameter; BD: base diameter; HFF: Hole Form Factor; THI: Tractional Hole Index; DHI: Diameter Hole Index; MHI: Macular Hole Index; MAI: Macular Hole Area Index; MH: Macular Hole; p: Degree of significance.

they have determined that a size of 650 μm was a more appropriate threshold for categorizing MHs as either medium or large. Their study demonstrated that conventional surgery for large macular holes (>650 μm) was less effective and recommended techniques such as inverted flap. Their findings indicated that calculating derived indices for MH measurement from basic ophthalmic measurements did not provide a significant advantage in predicting anatomic closure

and functional success after MH surgery. Instead, they identified the preoperative base diameter as the most critical factor in predicting both anatomic and functional success. Unlike our study, the basal diameter did not have any influence on the anatomical outcome of the surgery. In our series, we did not find a statistically significant correlation between the height of the MH and the anatomical outcome, which is consistent with most studies [8,9,10,11]. However, in a series of 38 patients who underwent MH surgery, Haritoglou et al. studied the association between certain tomographic parameters and long-term functional outcome. They found a negative correlation between height and visual acuity at 5 years after surgery [12]. In 2008, Ruiz-Moreno et al. described two additional indices [9]. These indices have a drawback in that they primarily consider only one of the two tractional forces responsible for MH formation. For instance, the DHI is based on the ratio of the minimum diameter of the MH to the base diameter, which indicates the strength of tangential traction at the fovea, assuming that the tractional force is at its maximum when the inner diameter of the MH is equal to the base diameter. A correlation between DHI and anatomical success has been described by some authors [3,6]. In a recent study, Venkatesh et al. [3] noted that a DHI <0.505 is a favorable prognostic factor. However in our study we did not notice any correlation between DHI and anatomical closure. Conversely, the THI is based on the ratio of the maximal height of the MH to the minimum diameter, which represents primarily the antero-posterior vitreomacular traction and/or retinal hydration responsible for MH formation and less of tangential traction. The THI was found to be significantly correlated with anatomical and functional outcome [3,6,9,13,14]. In our study, THI had the best predictive value for anatomical success among all tomographic parameters (p=0.013). In addition, a few other indices, such as the HFF and MHI, take into account both the tractional forces involved in MH formation. Ulrich et al. [4] in 2002 have presented a study based on the measurement of the HFF. They have expected that HFF which incorporates the nasal and temporal arms of the hole edges divided by the maximum diameter provide a more comprehensive picture of the MH. However Haritoglou et al. [12] have found a weak correlation between HFF and anatomical outcome. In our study, we did not find any correlation between HFF and the rate of closure. In 2004, Kusahara et al. [5] introduced the MHI, which employs the ratio of the MH height to the base diameter. By using a ratio rather than linear measurements, they were able to avoid

the impact of axial length on transverse measurements. Their study found a significant correlation between the MHI and postoperative macular thickness. However, in our series, no correlation was found between MHI and the anatomical outcome.

Table II. Multivariate regression analysis between spectral-domain optical coherence tomography parameters and macular hole closure.

Tomographic parameters	p	OR	Confidence interval	Moriyama et Hofling-Lima (Brésil), n=366 %
Macular Hole diameter	0,032	1,003	1,003 - 1,057	45,2
Tractional hole index (THI)	0,013	1,056	1,016 - 1,098	21,7
Hole Form Factor (HFF)	0,065	0,027	0,001 - 1,248	39,7
Macular Hole Area	0,132	1,000	1,000 - 1,000	1,67
Macular hole Area Index (MAI)	0,042	0,000	0,000 - 0,072	-

P: degree of significance, **OR:** odds ratio.

Chhablani et al. [6] have conducted a study to evaluate the utility of measuring the MH angle as a predictor of anatomical closure following MH surgery. Our results were consistent with those in the literature we have found that measuring the MH angle was not useful in predicting anatomical outcome after surgery by the reason that MH angle is a unidimensional measure that gives little information about the tractional forces responsible for MH formation. The edges of macular holes and the retinal surface are curved, making linear measurements potentially inaccurate. Fortunately, with advances in computing technology, it is now possible to automatically measure the area of irregularly shaped structures. Venkatesh et al. [3] have published a study in 2019 that developed three new area indices that are strongly correlated with MH closure. The MAI, in particular, appears to be the most significant predictor of anatomical success after MH surgery.

Table III. Comparison of qualitative tomographic data between the "Macular Hole Closure" group and the "Macular Hole Non-Closure" group.

	Group « MH closure » n=36		Group « MH non closure » n=4		P
	count	Pourcentage (%)	Nombre	Pourcentage (%)	
Intraretinal cystic cavities	32	88%	4	100%	0,168
RPE Proliferations	32	88%	3	75%	0,224
ERM	3	8%	0	0%	0,298

MH: macular hole; **RPE:** retinal pigment epithelium; **ERM:** epiretinal membrane; **n:** number, **p:** degree of significance.

In our series, we noted a statistically significant correlation between MAI and the anatomical outcome after the intervention. Regarding the qualitative parameters, the study by Chhablani et al. [6] did not demonstrate any correlation between the presence of cystic cavities, ERM, and RPE proliferations with the anatomical outcome, either in the univariate or multivariate analysis. As far as we know, this is the first study in Tunisia that has compared various prognostic factors within the same group of patients. Our study benefited from the fact that all patients with MHs were treated using a consistent surgical technique done by the same well-experienced surgeon, and all measurements were taken simultaneously using the same open-access imaging software. However, the study was limited by a small sample size and a relatively short follow-up period.

Conclusion

In conclusion, OCT remains the gold standard for assessing pathologies of the vitreomacular interface, particularly MHs. The positive diagnosis of MHs and therapeutic indications rely on OCT, which has also provided prognostic information by accurately measuring the size of the hole and studying various prognostic indices, which may influence the choice of surgical techniques and potentially offer new approaches for poor prognostic MHs. Further studies are necessary to continue exploring this direction in the future.

References

- Gass JD. Idiopathic senile macular hole: its early stages and pathogenesis. *Arch Ophthalmol.* 1988;106(5):629-39.
- Ch'ng SW, Patton N, Ahmed M, Ivanova T, Baumann C, Charles S, et al. The manchester large macular hole study: is it time to reclassify large macular holes? *Am J Ophthalmol.* 2018;195:36-42.
- Venkatesh R, Mohan A, Sinha S, Aseem A, Yadav N. Newer indices for predicting macular hole closure in idiopathic macular holes: a retrospective, comparative study. *Indian J Ophthalmol.* 2019;67(11):1857-62.
- Ulrich S, Haritoglou C, Gass C, Schaumberger M, Ulbig MW, Kampik A. Macular hole size as a prognostic factor in macular hole surgery. *Br J Ophthalmol.* 2002;86(4):390-3.
- Kusuhara S, Escaño MT, Fujii S, Nakanishi Y, Tamura Y, Nagai A, et al. Prediction of postoperative visual outcome based on hole configuration by optical coherence tomography in eyes with idiopathic macular holes. *Am J Ophthalmol.* 2004;138(5):709-16.
- Chhablani J, Khodani M, Hussein A, Bondalapati S, Rao HB, Narayanan R, et al. Role of macular hole angle in macular hole closure. *Br J Ophthalmol.* 2015;99(12):1634-8.
- Ip MS, Baker BJ, Duker JS, Reichel E, Bauman CR, Gangnon R, et al. Anatomical outcomes of surgery for idiopathic macular hole as determined by optical coherence tomography. *Arch Ophthalmol.* 2002;120(1):29-35.
- Wakely L, Rahman R, Stephenson J. A comparison of several methods of macular hole measurement using optical coherence tomography, and their value in predicting anatomical and visual outcomes. *Br J Ophthalmol.* 2012;96(7):1003-7.
- Ruiz Moreno JM, Staicu C, Pinero DP, Montero J, Lugo F, Amat P. Optical coherence tomography predictive factors for macular hole surgery outcome. *Br J Ophthalmol.* 2008;92(5):640-4.
- Kusuhara S, Negi A. Predicting visual outcome following surgery for idiopathic macular holes. *Ophthalmologica.* 2014;231(3):125-32.
- Oh J, Smiddy WE, Flynn HW, Gregori G, Lujan B. Photoreceptor inner/outer segment defect imaging by spectral domain OCT and visual prognosis after macular hole surgery. *Invest Ophthalmol Vis Sci.* 2010;51(3):1651-8.
- Haritoglou C, Neubauer AS, Reiniger IW, Priglinger SG, Gass CA, Kampik A. Long-term functional outcome of macular hole surgery correlated to optical coherence tomography measurements. *Clin Exp Ophthalmol.* 2007;35(3):208-13.
- Geng XY, Wu HQ, Jiang JH, Jiang K, Zhu J, Xu Y, et al. Area and volume ratios for prediction of visual outcome in idiopathic macular hole. *Int J Ophthalmol.* 2017;10(8):1255-60.
- Tayyab H, Siddiqui R, Jahangir S, Hashmi S. Optical coherence tomography based indices in predicting functional outcome of macular hole surgery: a retrospective chart review. *Pak J Med Sci.* 2021;37(5):1504-8.

ARTICLE ORIGINAL

Idiopathic large macular holes: management and review of literature

Les trous maculaires larges idiopathiques : traitement et revue de la littérature

Zgolli Hsouna, Maslah Tarak, Abdelhedi Chiraz*, Mekni Manel, Fekih Olfa, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila.

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

Key-words

idiopathic macular hole, surgery, large

Abstract

Introduction. The closure rate of large or wide idiopathic macular holes (MH) varied between 50 and 70%. The inverted flap (IF) technique is a potential procedure that would considerably improve postoperative anatomical and functional surgery success rate. The aim of our study was to evaluate the efficacy of the IF technique for the management of large idiopathic MH.

Methods. Prospective, interventional, descriptive and evaluative study interesting 40 eyes operated on for large MH, randomized into 3 groups according to the variant of the IF technique: classic, temporal and without manipulation, with a minimum postoperative follow-up of 6 months. Postoperative functional and anatomical outcomes were searched for the entire population and within each group. A value of $p < 0.05$ was considered as statically significant.

Results. Preoperatively, the mean visual acuity (VA) was 1 LogMAR; the mean MH size was $689.59 \pm 153.13 \mu\text{m}$. The classic, temporal and without manipulation IF groups had 13, 13 and 14 eyes respectively. Postoperatively, the closure rate was 84.61%, 100% and 92.8% respectively. At six months postoperatively, significant VA improvement was observed in 70% of the eyes ($p < 0.001$); the visual gain in the classic, temporal and without manipulation IF group was 0.47, 0.34 and 0.34 LogMAR respectively ($p = 0.66, 0.182$ and 0.182 , respectively). The outer limiting membrane and ellipsoid zone were regenerated in 38% and 32.4% of the eyes. The three variants were comparable in terms of MH closure ($p = 0.222$) and final visual gain ($p = 0.66$). Significant predictors of no-closure of the MH were: a diameter $> 900 \mu\text{m}$ ($p = 0.015$) and a duration of visual decline > 13 months ($p = 0.02$).

Conclusion. The IF technique significantly improves the closure rate of large MH with excellent functional results. The three variants are comparable and guarantee the same postoperative results.

Mots-clés

trou maculaire idiopathique, chirurgie, trou maculaire large

Résumé

Introduction. Le taux de fermeture des trous maculaires (TM) larges idiopathiques variait entre 50 et 70 %. La technique du lambeau inversé est une procédure potentielle qui a considérablement amélioré les résultats post opératoires aussi bien sur le plan anatomique que fonctionnel.

Le but de notre étude était d'évaluer l'efficacité de cette technique dans la prise en charge des TM larges idiopathiques.

Méthodes. Etude prospective, interventionnelle, descriptive et évaluative intéressant 40 yeux opérés pour des TM larges, randomisés en 3 groupes selon la variante de cette technique : lambeau inversé 'classique', 'temporal' et 'sans manipulation', avec un suivi postopératoire minimum de 6 mois. Les résultats fonctionnels et anatomiques postopératoires ont été recherchés pour l'ensemble de la population et au sein de chaque groupe. Une valeur de $p < 0,05$ a été considérée comme statistiquement significative.

Résultats. En préopératoire, la meilleure acuité visuelle (AV) moyenne corrigée était de 1 LogMAR ; la taille moyenne du TM était de $689,59 \pm 153,13 \mu\text{m}$. 13 patients ont été opérés par la technique du lambeau inversé classique, 13 autres patients par la technique du lambeau temporal et 14 patients ont été opérés par la méthode sans manipulation. En postopératoire, le taux de fermeture était de 84,61 %, 100 % et 92,8 % respectivement. Six mois après l'opération, une amélioration significative de l'AV a été observée dans 70 % des yeux ($p < 0,001$) ; le gain visuel dans le groupe lambeau inversé 'classique', 'temporal' et 'sans manipulation' était de 0,47, 0,34 et 0,34 LogMAR respectivement ($p = 0,66, 0,182$ et $0,182$, respectivement). La membrane limitante externe et la zone ellipsoïde ont été régénérées dans 38 % et 32,4 % des yeux. Les trois variantes étaient comparables en termes de fermeture du TM ($p = 0,222$) et de gain visuel final ($p = 0,66$). Les prédicteurs significatifs de non-fermeture du TM étaient : un diamètre $> 900 \mu\text{m}$ ($p = 0,015$) et une durée de baisse visuelle > 13 mois ($p = 0,02$).

Conclusion. La technique du lambeau inversé améliore significativement le taux de fermeture des TM larges avec d'excellents résultats fonctionnels. Les trois variantes sont comparables et garantissent les mêmes résultats postopératoires.

Introduction

The management of large idiopathic macular holes (MH) (diameter $> 400 \mu\text{m}$) has always been a matter of debate. Simple peeling of the internal limiting membrane (ILM) has been shown to be successful in small and medium-sized MH ($< 400 \mu\text{m}$) with closure rates of up to 100% and significant improvement in visual acuity. However, in large MH, the results were disappointing with a closure rate of only 40% [1]. The advent of the inverted flap (IF) technique with Michalewska in 2010 has improved the prognosis of large macular holes (MH).

According to foreign series, this technique has an anatomical success rate of over 90% and a significant visual gain in the treatment of large MH [1]. In their first comparative interventional study, Michalewska and al [2] reported a 98% anatomic success rate with the classic inverted flap technique with a significant improvement in visual acuity. However, there may be some limitations regarding the inverted flap technique variants such as deterioration of visual acuity, as well as pigmentary epithelium atrophy and the high number of DONFLs associated with the classic technique. The two other variants, the temporal and the free flap inverted flap techniques, were invented in order

*Corresponding author:

Chiraz Abdelhedi

e-mail : chirazabdelhedi1992@gmail.com

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology, Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

to limit the flap manipulations on the macular hole and the flap itself. The aim of this study is to evaluate the anatomical and functional results after large MH surgery using the inverted flap technique; to compare the efficacy of variants of the IF technique and to determine prognosis factors for functional and anatomical recovery based on OCT-SD data.

Methods

The study was conducted in accordance with the Declaration of Helsinki. We undertook a prospective, interventional, descriptive and comparative study of patients with large idiopathic macular hole (> 400 μm) in the department A: at Hedi Raies Institute of Ophthalmology of Tunis. This study was conducted over a 20-month period, between January 2019 and August 2020, and involved a series of 40 eyes of 38 consecutive patients managed, operated on, and followed in our department. Patients were recruited in a single-blind randomization. No patient had a history of amblyopia or macular pathology previously affecting visual acuity. All patients included in the study had undergone a complete ophthalmologic and tomographic examination with the Heidelberg Spectralis Spectral Domain OCT, before and after eye surgery, with a minimum postoperative follow-up of 6 months. The performing and interpretation of SD-OCT sections were done by the same operator.

Surgical technique

Surgery was performed by the same retinal surgeon using the same instrumentations. We performed a pars plana 23-gauge vitrectomy. Peeling was performed under a high magnification lens, using a 23G ILM forceps. We used Brilliant Blue G (BBG or ILM blue) to stain the ILM. Non expansive sulfur hexafluoride (SF_6) tamponade was performed in all patients at the end of surgery.

The ILM was peeled using the following operative techniques:

The "classic inverted flap technique" During this procedure the BBG-stained the internal limiting membrane. Then, the ILM was grasped with the ILM forceps in the superior temporal of the macular hole. Peeling of the ILM flap was performed for approximately 2 papillary diameters (PD) of radius around the macular hole (maculorhexis), while maintaining a 360-degree attachment to the MH edges. Next, we inverted the first part of the ILM flap with the cutter so that the vitreous side of the ILM was deposited on the MH, and then the second part of the flap was applied over the other one (**Figure 1**).

The "temporal inverted flap technique"

The maculorhexis is primed temporally like the classic technique. A temporal flap of ILM is peeled off with a radius of 2 PD. There is no manipulation of the inter maculo-papillary retina in this technique. Finally, the ILM temporal flap is inverted over the MH before the fluid-air exchange (**Figure 2**).

The "inverted flap without manipulation technique"

The difference between this technique and the classic one is the absence of manipulation of the ILM flap after maculorhexis. The fluid-air exchange is performed while the ILM flaps are directed towards the vitreous cavity and not deposited over the MH (**Figure 3**).

Results

Our series included 40 eyes of 38 consecutive patients with a large idiopathic macular hole. The sex ratio was 2/3 with a female predominance (60%). The mean age was 64 years with a standard deviation of 8.42. The mean duration of evolution of the delayed MH in our study was 7 ± 4.4 months. Bilateral involvement was recorded in 6 patients (15%).

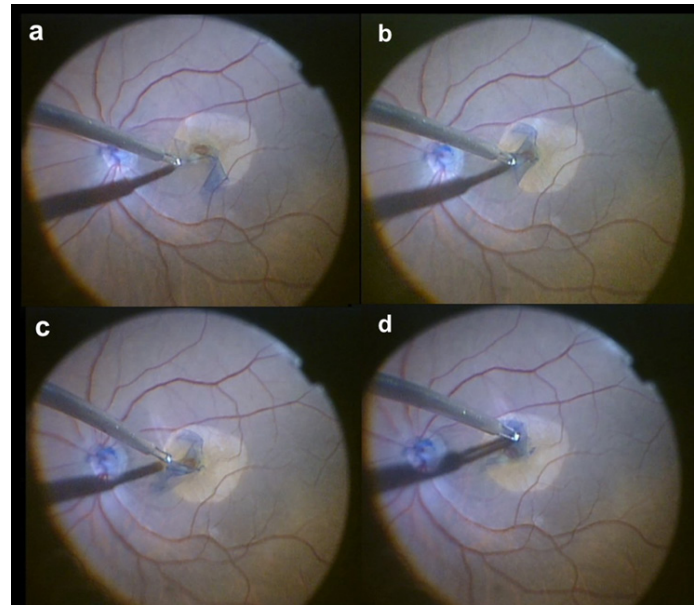


Figure 1. The different steps of the classic inverted flap technique (a) Peeling and inversion of the first internal limiting membrane flap; (b) Peeling of the second flap (c,d). Inversion of the second flap over the first flap

Clinically, all patients had decreased visual acuity; 43% had metamorphopsia and 45% complained of central scotoma. The mean macular hole size was $692.59 \pm 147.207 \mu\text{m}$ with a mean maximum size of $1436.06 \pm 200.246 \mu\text{m}$. All our patients have been operated using the inverted flap technique: the classic one in 13 eyes (32%), without manipulation in 14 eyes (36%) and the temporal flap technique in 13 eyes (32%).

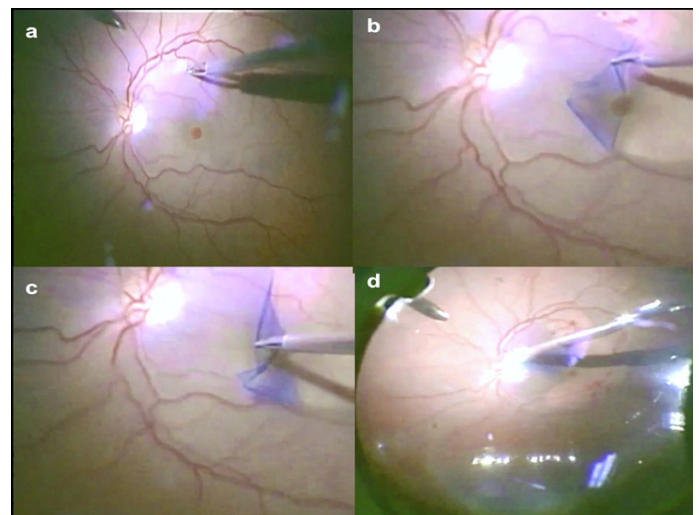


Figure 2. Initiation of maculorhexis after retinal blue staining; (b) Peeling of the temporal internal limiting membrane flap; (c) Inversion of the flap on the inter maculo-papillary retina; (d) Fluid-air exchange before gas injection.

After complete resorption of SF_6 , with average duration of tamponade of 3 weeks, we recorded a closure rate of 93% of the MH (37 eyes). This rate was 85% in the classic inverted flap technique group, 100% in the temporal inverted flap technique group and 93% in the without manipulation group (**Table I**). At 6 months postoperatively, 18 eyes (49%) had "U" shaped foveolar closure, 14 eyes (38%) had "V" shaped foveolar closure, and 5 eyes (13%) had "W" shaped foveolar closure with better visual recovery in the "U" foveolar closure group (**Figure 4**). Functionally, we observed a decrease in the rate of metamorphopsia and central

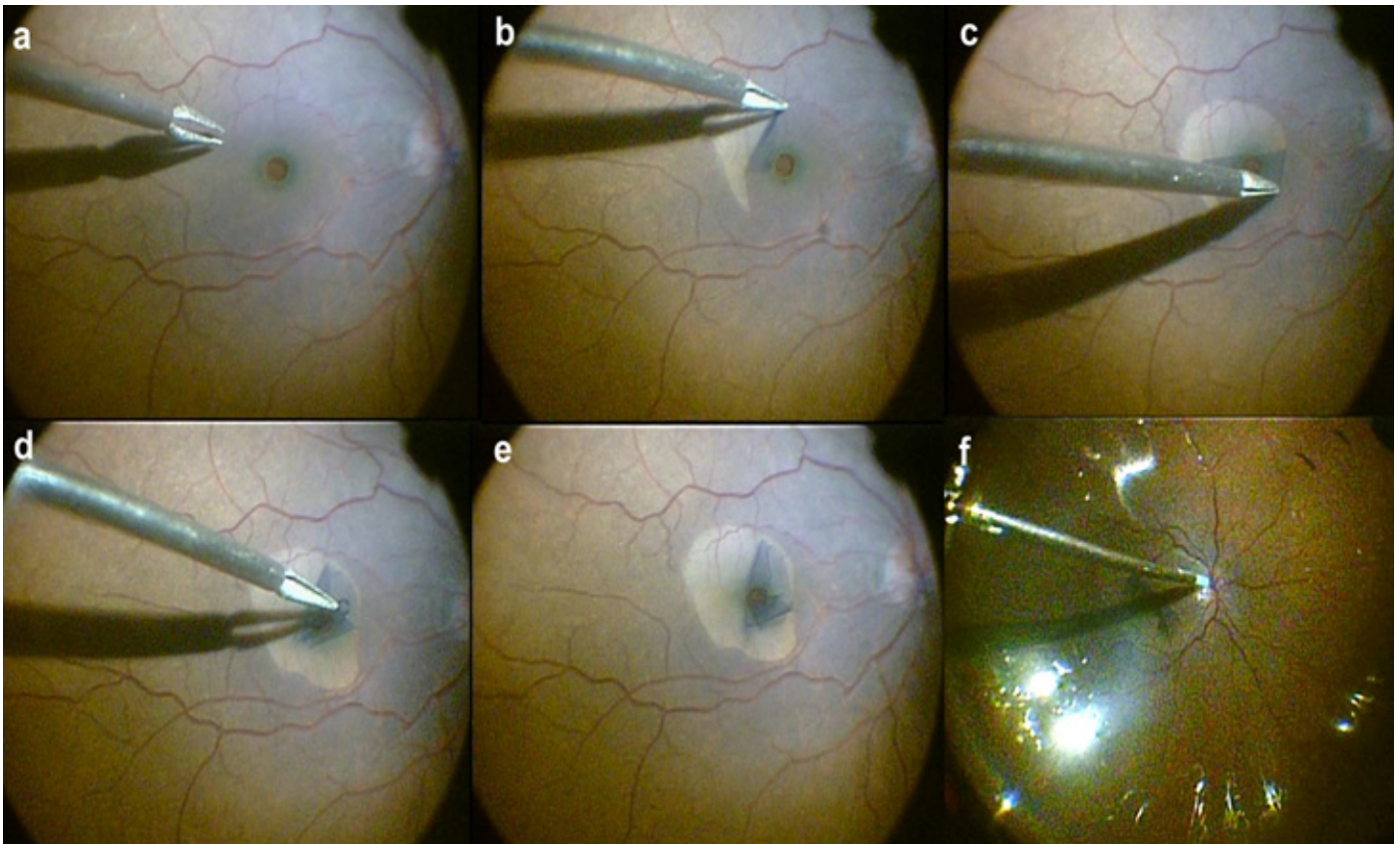


Figure 3. The different steps of the inverted flap technique without manipulation (a) Initiation of maculorhexis in the temporal area; (b,c) Peeling of the first internal limiting membrane flap; (d,e) Peeling of the second internal limiting membrane flap without inversion; (f) Fluid-air exchange.

Table I. Macular hole closure rates according to surgical technique

Surgical technique	Closure of the macular hole		Non-closure of the macular hole	
	number	percentage	Number	Percentage
Classic inverted flap	11	85	2	15
Temporal inverted flap	13	100	0	0
Inverted flap without manipulation (free flap)	13	93	1	7

scotoma (10% and 18% respectively) with an improvement in visual acuity (VA) in 26 eyes (70%). The mean best corrected visual acuity (BCVA) was 3/10 Snellen (0.52 LogMAR) in 30% of patients, 6/10 Snellen (0.22 LogMAR) in 22% and 4/10 Snellen (0.4 LogMAR) in 12% of eyes. **Table II** summarizes the visual acuity and visual gain at 6 months post-operatively according to the surgical technique. At 6 months postoperatively, the regeneration of the external limiting membrane was observed in 38% with ad-integrum restitution of the ellipsoid zone in 32% of eyes. Concerning the dissociated optic nerve fiber layer (DONFL), we observed a decrease in their number at 3 and 6 months postoperatively. Indeed, six months after surgery, DONFLs disappeared in 20% of eyes. On the other hand, we found that the greatest number of DONFLs was diagnosed in patients operated by the inverted flap technique without manipulation (**Figures 5, 6**).

Comparing the classic inverted flap technique to the inverted flap technique without manipulation, we concluded that these two techniques were statistically comparable in terms of MH closure ($p=0.222$) and visual gain ($p=0.66$). Similarly, the classic

inverted flap technique was statistically comparable to the temporal one in both of MH closure and visual gain ($p=0.5$ and $p=0.189$ respectively). After multivariate analysis of the different actual factors impacting MH closure and visual gain, we found that the only prognosis factor influencing anatomic closure was the evolution of MH, and this when comparing the classic technique to the IF technique without manipulation ($p=0.044$), and to the temporal flap technique ($p=0.037$) (**Tables III, IV**).

Comparing the classic inverted flap technique to the inverted flap technique without manipulation, we concluded that these two techniques were statistically comparable in terms of MH closure ($p=0.222$) and visual gain ($p=0.66$). Similarly, the classic inverted flap technique was statistically comparable to the temporal one in both of MH closure and visual gain ($p=0.5$ and $p=0.189$ respectively). After multivariate analysis of the different actual factors impacting MH closure and visual gain, we found that the only prognosis factor influencing anatomic closure was the evolution of MH, and this when comparing the classic technique to the IF technique without manipulation ($p=0.044$), and to the temporal

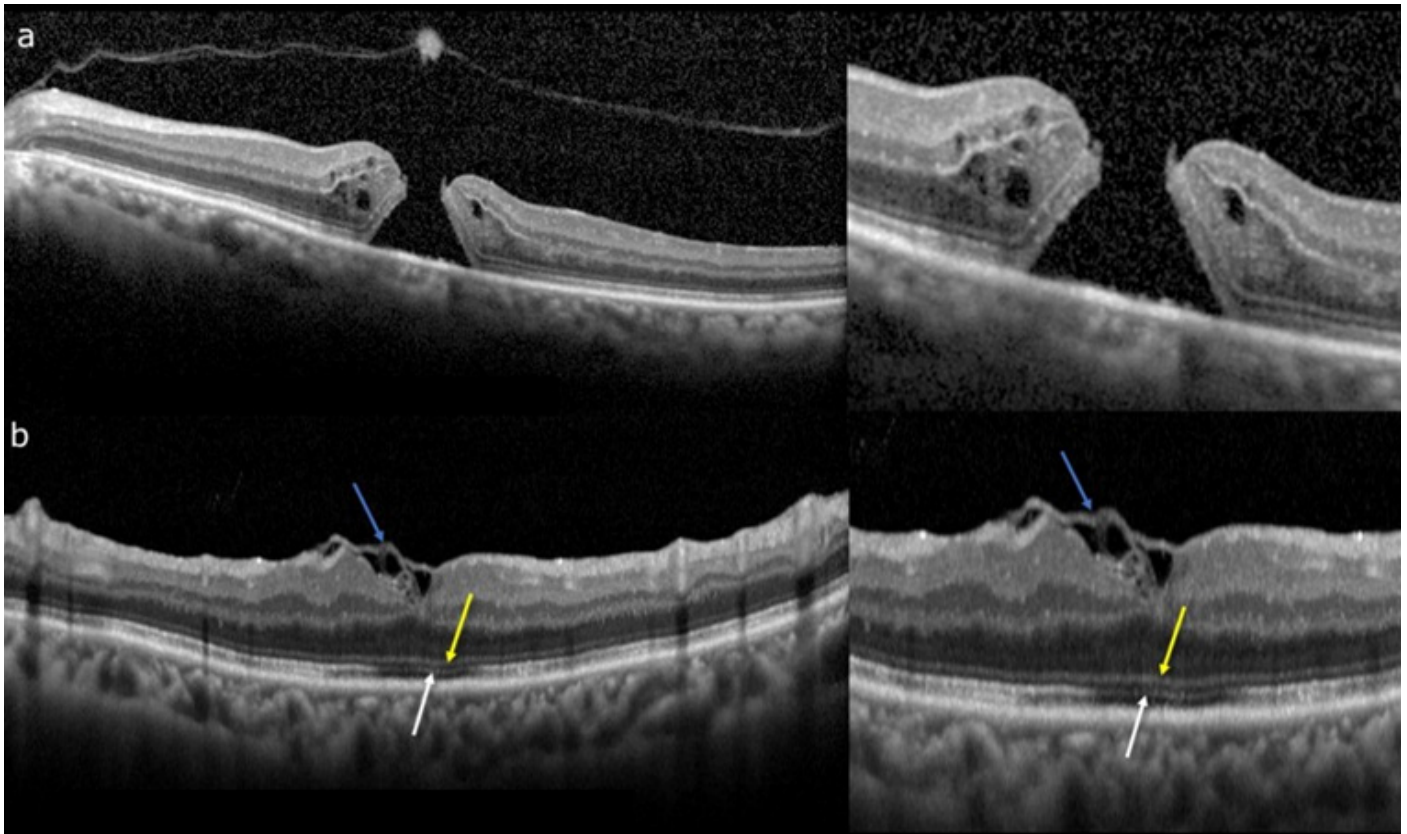


Figure 4. Tomographic illustration of complete postoperative regeneration of the different neuroretinal layers after surgery (a) Preoperative SD-OCT showing a 520 µm full thickness idiopathic macular hole with best corrected visual acuity (BCVA) of 1 LogMAR; (b) SD-OCT at 6 months postoperatively showing closure of the macular hole with regeneration of the outer limiting membrane (yellow arrow) and the IS/OS line (white arrow), the flap is still visible on the surface (blue arrow) over a "U" shaped closure, the BVCA was up to 0.52 LogMAR (the same visual acuity as at 3 months but with disappearance of the metamorphopsias and central scotoma).

Table II. Distribution of the best-corrected visual acuity by surgical technique.

Tomographic parameters	Preoperative BCVA (LogMAR)	Postoperative BCVA (LogMAR)	Visual gain (LogMAR)	P
Classic inverted flap	0.95 ± 1	0.48 ± 0.63	0.47	
Inverted flap without manipulation	1.03 ± 1.69	0.69 ± 1	0.34	0.016
Temporal inverted flap	0.92 ± 1	0.58 ± 0.69	0.34	

flap technique ($p=0.037$) (Table III). Furthermore, we calculated the MH diameter at which the risk of non-closure was maximal through the study of the ROC curve and we found that a diameter greater than 900 µm was correlated with a risk of non-closure greater than 97.3%, with a very good predictive value ($p=0.015$) (Figure 7). Similarly, we calculated the duration of evolution from which the risk of non-closure was maximal, and we found that a duration more than 13 months was correlated with a risk of non-closure higher than 87% with a good predictive value ($p=0.02$) (Figure 8).

Discussion

In our study we used and compared three different techniques: the classic inverted flap technique that has been considered until nowadays, according to the literature, as the reference technique

for the treatment of large idiopathic MH (13 patients), the temporal inverted flap technique (13 patients) and the inverted flap without manipulation (14 patients). In their first comparative interventional study, Michalewska and al [2] reported a 98% anatomic success rate with the inverted flap technique versus 88% with the single peel technique of the ILM. Rizzo and al [3] reported an anatomical success rate of 95.6% in the inverted flap group (300 eyes) compared to 78.6% in the single peel ILM group (320 eyes). However, there may be some limitations regarding the inverted flap technique. The most reported complications in the literature were a detachment of the inverted flap during fluid-air exchange [2], deterioration of visual acuity reported by Deshpande and al [4] and Hirano and al [5] as well as pigmentary epithelium (PE) atrophy and especially the high number of DONFLs associated with this technique [6]. To deal with these complications, Shin and al [7], in 2014, presented a modified technique that used perfluoro-n-octane (PFO) to stabilize the inverted flap on the macular hole.

On the other hand, in 2015, Michalewska Z and al introduced the variant of the inverted flap technique, the temporal inverted flap, which removes the ILM only from the temporal side of the hole, and demonstrated that the closure rate and functional improvement with this variant for large MHs did not differ from that of the conventional technique [8].

In 2016, Andrew and al [9] described a modified technique that involves inserting the ILM into the macular hole and using a viscoelastic cap to improve flap retention in the hole.

In 2017, Casini and al [10] introduced another modified technique to perform an inverted flap without manipulating the ILM flap in order to reduce the risk of PE damage. In our study, we found, regardless of surgical techniques, a significant improvement in visual acuity in 26 eyes (70%) at 6 months postoperatively ($p<0.001$). These results are in agreement with the results of the systematic review published by Chufeng Gu and al in 2017 [11], who found that

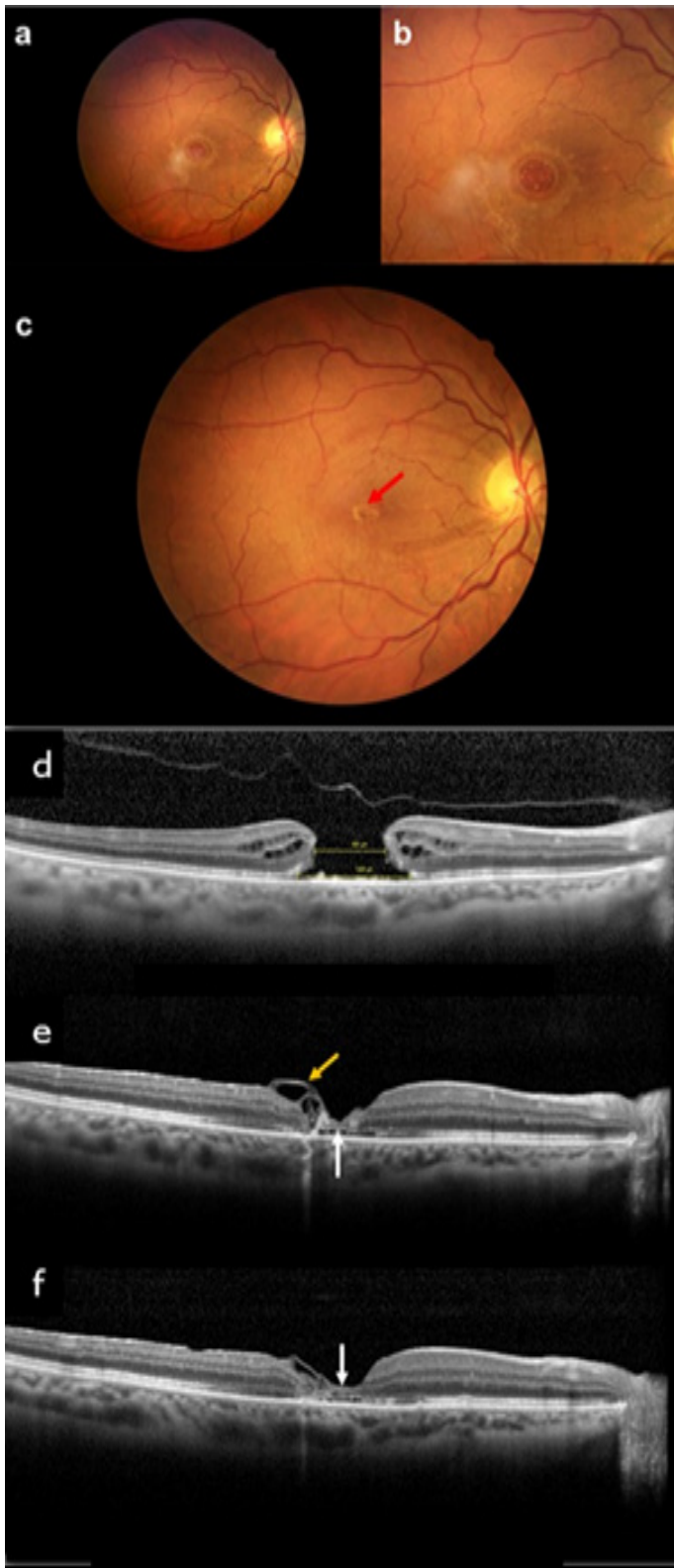


Figure 5. Pre- and postoperative retinography and tomographic appearance of a large idiopathic macular hole operated by the temporal inverted flap technique (a,b) Preoperative retinography (b) high magnification) in a 62-year-old woman showing a full thickness macular hole (TM) evolving for 10 months exposing the pigment epithelium with lifting of the TM edges; (c) Retinography at 1 month post-op showing closure of the hole (red arrow); (d) Pre-operative OCT-SD showing a large macular hole of 721 μm ; best corrected visual acuity (BCVA) at distance at 2 LogMAR with absolute central scotoma; (e) OCT-SD at 1 month post-op: closure of the macular hole with formation of the inner retinal bridge connecting the 2 edges of the macular hole (white arrow), the outer neuroretina is not yet developed. The temporal flap is clearly visible (yellow arrow). The BCVA was 1.4 LogMAR with a decrease in the size of the central scotoma; (f) OCT-SD at 3 months post-op: healing of the U-shaped foveal contour and regeneration of the outer limiting membrane without IS/OS line (white arrow) with a BCVA at 1.1 LogMAR and complete disappearance of the central scotoma.

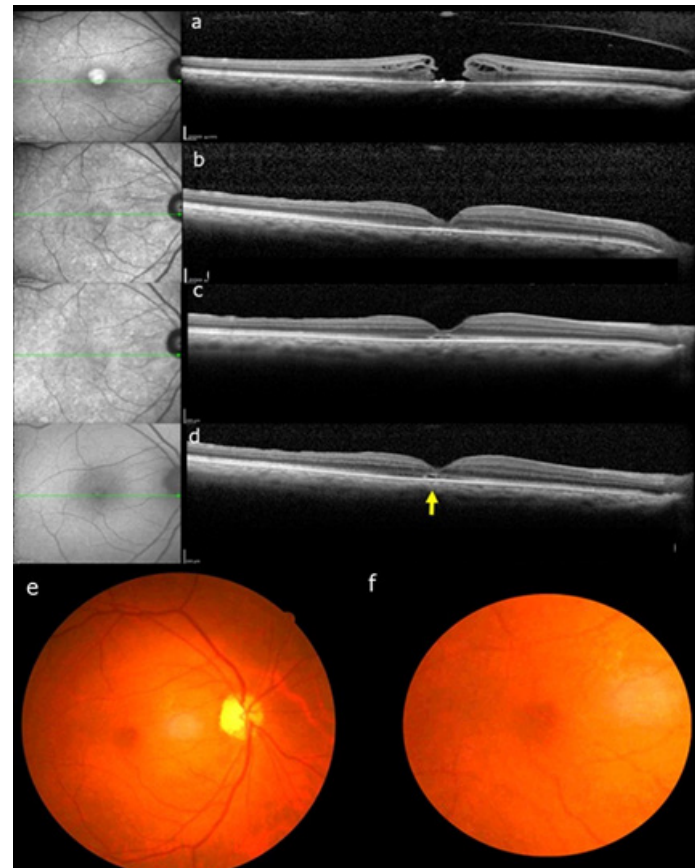


Figure 6. Illustration of the closure of an idiopathic macular hole operated by the inverted flap technique without manipulation (a) Preoperative SD-OCT of a 57 year old woman showing a large macular hole of 800 μm diameter evolving for 4 months with a best corrected visual acuity (BCVA) of 1.7 LogMAR associated with a central scotoma; (b) SD-OCT at 1 month postoperatively: closure of the macular hole with complete regeneration of the inner retina; the BCVA was up to 1.2 LogMAR with complete disappearance of the central scotoma; (c) SD-OCT at 3 months postoperatively: healing of the U-shaped foveal contour and regeneration of the outer limiting membrane without regeneration of the IS/OS line, the BCVA was at 1 LogMAR; (d) SD-OCT 6 months postoperatively: definitive healing of the macular hole with "U" shaped foveal contour without regeneration of the IS/OS line (yellow arrow), the BCVA was at 1 LogMAR; (e,f) Retinography of the right eye at 3 months after surgery showing closure of the macular hole with a normal foveal reflection (f).

the improvement in VA in patients operated on by the inverted flap technique was up to 95%. Michalewska and al, in their two series published in 2010 and 2015 [2,8], found a statistically significant improvement in postoperative visual acuity in 100% of cases with the two surgical techniques, namely the classic inverted flap and the temporal inverted flap. Regardless of operative technique and MH size, our study in addition to the literature review concluded that preoperative visual acuity was the main predictor of surgical success. Indeed, better preoperative visual acuity was associated with higher rate of visual gain and anatomic closure [12-16]. On the other hand, the short evolution time is also a crucial factor for achieving both better visual results and anatomical closure of the MH [16]. Gupta and al [17] showed through a multivariate regression analysis that age, preoperative visual acuity and hole size were the only significant predictors of visual success in terms of operated wide MH. In conclusion, the last decade has seen big surgical advances in the treatment of large idiopathic macular holes (> 400 μm). These new techniques have allowed a spectacular improvement in the anatomical and functional prognosis of large macular holes but also a great solutions to propose for the management of chronic, post-traumatic, refractory macular holes and macular holes of high myopia. Choosing which variant of the inverted flap technique to use, remains for the retinal surgeon and will depend mainly on his surgical skills.

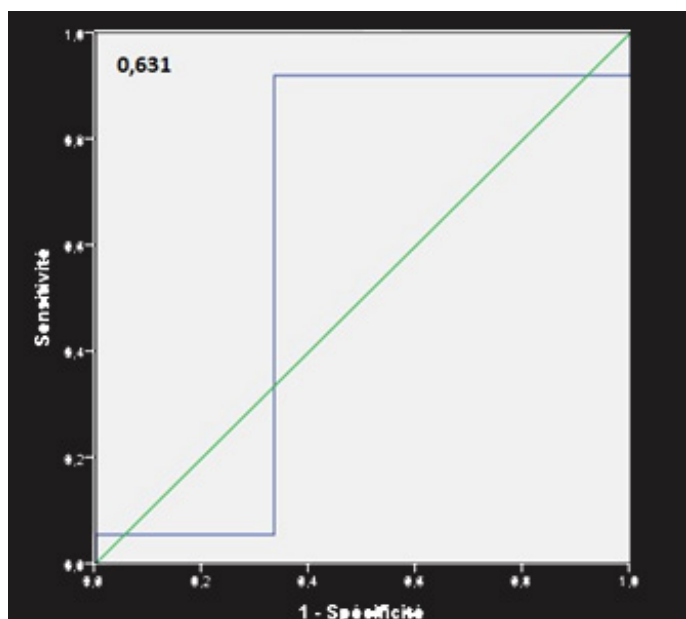


Figure 7. ROC curve for macular hole diameter

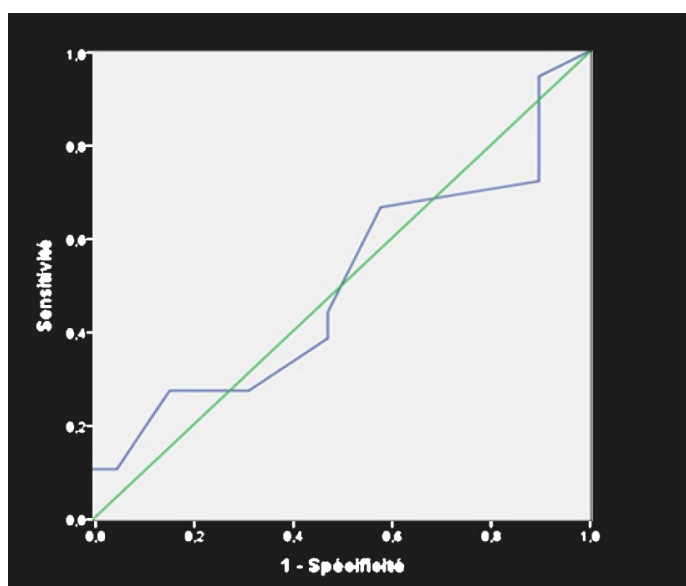


Figure 8. ROC curve for macular hole evolution time

Table III. Correlations between macular hole closure and prognosis factors in the classic inverted flap group versus the inverted flap technique without manipulation (P1) or the temporal inverted flap technique (P2): multivariate analysis.

Prognosis factor	P1	P2
Age	0.087	0.087
Sex	0.465	0.465
Macular hole evolution time	0.040	0.040
Diameter of the macular hole	0.849	0.849

Disclosure statement

Declaration of conflicting interests. The authors declared no potential conflicts of interest with respect to the research, authorship, and/or publication of this article.

Funding. The authors received no financial support.

References

- Shen Y, Lin X, Zhang L, Wu M. Comparative efficacy evaluation of inverted internal limiting membrane flap technique and internal limiting membrane peeling in large macular holes: a systematic review and meta-analysis. *BMC Ophthalmol.* 2020;20(1):14.
- Michalewska Z, Michalewski J, Adelman RA, Nawrocki J. Inverted internal limiting membrane flap technique for large macular holes. *Ophthalmology.* 2010;117(10):2018-25.
- Rizzo S, Tartaro R, Barca F, Caporossi T, Bacherini D, Giansanti F. Internal limiting membrane peeling versus inverted flap technique for treatment of full-thickness macular holes: a comparative study in a large series of patients. *Retina.* 2018;38 Suppl 1:73-8.
- Deshpande R, Narayanan R. Surgical repair of a giant idiopathic macular hole by inverted internal limiting membrane flap. *BMJ Case Rep.* 2015;2015: bcr2015210797.
- Hirano M, Morizane Y, Kawata T, Kimura S, Hosokawa M, Shiode Y, et al. Case report: successful closure of a large macular hole secondary to uveitis using the inverted internal limiting membrane flap technique. *BMC Ophthalmol.* 2015;15(1):15-83.
- Imai H, Azumi A. The expansion of RPE atrophy after the inverted ILM flap technique for a chronic large macular hole. *Case Rep Ophthalmol.* 2014;5(1):83-6.
- Shin MK, Park KH, Park SW, Byon IS, Lee JE. Perfluoro-n-octane-assisted single-layered inverted internal limiting membrane flap technique for macular hole surgery. *Retina.* 2014;34(9):1905-10.
- Michalewska Z, Michalewski J, Dulcowska C, Cichecka K, Adelman RA, Nawrocki J. Temporal inverted internal limiting membrane flap technique versus classic inverted internal limiting membrane flap technique: a comparative study. *Retina.* 2015;35(9):1844-50.
- Andrew N, Chan WO, Tan M, Ebnetter A, Gilhotra JS. Modification of the inverted internal limiting membrane flap technique for the treatment of chronic and large macular holes. *Retina.* 2016;36(4):834-7.
- Casini G, Mura M, Figus M, Loiudice P, Peiretti E, De Cillà S, et al. Inverted internal limiting membrane flap technique for macular hole surgery without extra manipulation of the flap. *Retina.* 2017;37(11):2138-44.
- Cheng SW, Patton N, Ahmed M, Ivanova T, Baumann C, Charles S, et al. The Manchester large macular hole study: is it time to reclassify large macular holes? *Am J Ophthalmol.* 2018;195:36-42.
- Gu C, Qiu Q. Inverted internal limiting membrane flap technique for large macular holes: a systematic review and single-arm meta-analysis. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol.* 2018;256(6):1041-9.
- Bikbova G, Oshitari T, Baba T, Yamamoto S, Mori K. Pathogenesis and management of macular hole: review of current advances. *J Ophthalmol.* 2019;2019:3467381.
- Kannan NB, Kohli P, Parida H, Adenuga OO, Ramasamy K. Comparative study of inverted internal limiting membrane (ILM) flap and ILM peeling technique in large macular holes: a randomized-control trial. *BMC Ophthalmol.* 2018;18(1):177.
- Hayashi H, Kuriyama S. Foveal microstructure in macular holes surgically closed by inverted internal limiting membrane flap technique. *Retina.* 2014;34(12):2444-50.
- Jaycock PD, Bunce C, Xing W, Thomas D, Poon W, Gazzard G, et al. Outcomes of macular hole surgery: implications for surgical management and clinical governance. *Eye.* 2005;19(8):879-84.
- Gupta B, Laidlaw DH, Williamson TH, Shah SP, Wong R, Wren S. Predicting visual success in macular hole surgery. *Br J Ophthalmol.* 2009;93(11):1488-91.

ARTICLE ORIGINAL

Surgical outcomes after Inverted Internal Limiting Membrane Flap for Large Idiopathic Macular Hole

Abdaoui Mouna*, Zgolli Hsouna, Jabri Ahmed, Ben Abderrazek Atf, Nacef Leila

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

Keywords

Macular holes,
Inverted Internal
Limiting Membrane
(ILM) flap, Optical
coherence tomogra-
phy.

Abstract

Background. Large idiopathic macular hole (IMH) is responsible for gross impairment of central vision. **The aim** of this study was to evaluate the anatomical and visual outcomes of inverted flap technique of peeling of internal limiting membrane for large IMH

Methods. We conducted a prospective, descriptive study in Hedi Rais Institute of Ophthalmology, department A, which included 40 patients with large idiopathic macular hole and operated between January and September 2020 with a minimum follow-up of 9 months. All 40 macular holes (diameter > 400 µm) were treated with inverted internal limiting membrane (ILM) flap technique. The procedure for macular hole surgery was pars plana vitrectomy, posterior vitreous removal, ILM peeling with brilliant blue assisted, inverting ILM flap into macular hole, filling of the vitreous cavity with a gas bubble (SF6 20%) and post-operative face-down positioning for five days. SD Optical coherence tomography (OCT) images were taken preoperative and postoperative 1 month, 3 months, 6 months and 9 months follow up to assess the anatomical outcome of surgery and best corrected visual acuity (BCVA) was used to evaluate the functional outcome during each visit. The BCVA was recorded using the Snellen chart and was converted to the logarithm of the minimum angle of resolution (LogMAR) equivalents.

Results. The mean age of patients was 65.97 ± 4.7 years. The MH closure rate after surgery was 90%. Complete recovery of the external limiting membrane and ellipsoid zone was observed in 83% and 64% of the patients respectively, 9 months after surgery. External limiting membrane and ellipsoid zone recovery correlated with best-corrected visual acuity (p<0.001).

Conclusion. Inverted internal limiting membrane flap technique is an effective method for repairing large macular holes.

Introduction

Idiopathic macular hole (IMH) is defined as a complete interruption of all retinal layers at the foveola level; from the internal limiting membrane to the pigment epithelium [1]. It is a rare pathology, with an incidence of approximately 8 per 100,000 person per year, with risk factors being age over 65 and female gender [2]. IMH is responsible for a profound alteration of central vision. The resulting macular syndrome is associated with varying degrees of decreased visual acuity, central scotoma, and metamorphopsia [3]. Its pathophysiology involves a dual component: tangential traction and anteroposterior traction due to an incomplete posterior vitreous detachment with persistent adhesion at the posterior pole [1]. In 1991, Kelly and Wendel introduced a successful treatment for macular hole (MH) involving pars plana vitrectomy (PPV) and fluid-gas exchange. [4] Further improvements, such as internal limiting membrane (ILM) peeling, increased the success rate of the surgery to 97%. However, large MHs still pose a challenge, with reported closure rates between 50% and 88% [5] Recently, the inverted ILM flap technique was developed by Michalewska to address this issue and has shown superior results in treating large MHs compared to ILM peeling. [5] Optical coherence tomography (OCT) has become the leading method for diagnosing retinopathy and confirming anatomical success after IMH surgery, as it can clearly depict retinal microarchitecture. Spectral domain OCT (SD-OCT) studies have demonstrated that photoreceptor layer structural changes, including disruption of the ellipsoidal zone (EZ) and external limiting membrane (ELM), can be delineated after surgical closure of IMH. However, only few studies have assessed the anatomical reconstruction of the

fovea centralis after utilizing the inverted ILM flap technique in IMH patients. These studies have highlighted the importance of ELM recovery as a key structural feature associated with postoperative best-corrected visual acuity (BCVA). In our study, we used the inverted ILM flap technique to treat patients with large IMH, and observed the anatomical and visual outcomes of the macular holes. This provides a better treatment approach and theoretical basis for IMH treatment [6]

Methods

Patients with large idiopathic macular holes more than 400 µm were collected at A Department, Hedi Rais Institute of Ophthalmology in this prospective study.

All patients provided written consent after being informed about the study, and permission for the study was obtained from the Ethics Committee of the Hospital. Inclusion criteria were idiopathic macular hole with a size greater than or equal to 400 micrometers on a central OCT scan and a minimum postoperative follow-up of 9 months. We did not include patients with history of ocular trauma, vitreoretinal surgery, high myopia, secondary macular hole and any ocular pathology that could affect central vision (maculopathy, optic neuropathy). The following were excluded from the study: poor quality OCT images (corneal opacity, dense cataract, vitreous opacities, or poor patient fixation), failure of the inverted flap technique during surgery; aspiration of the flap by the extrusion cannula or spontaneous detachment of the flap from the edges of the macular hole's internal limiting

*Corresponding author

Mouna Abdaoui

e-mail: drabdaouimouna@gmail.com

Department A, Hedi Rais Institute of Ophthalmology, Tunis, Tunisia

membrane. Patients underwent complete ophthalmological examination and SD OCT (Ziess, cirrus) scan for measurement of macular hole base diameter at preoperative and follow up 1 month, 3 months, 6 months and 9 months.

Measurement of best-corrected visual acuity (BCVA) for distance in decimal fraction (Snellen chart). These acuities were converted to LogMAR (logarithm of the minimum angle of resolution) for statistical analysis. Measurement of intraocular pressure with a Goldman applanation tonometer was conducted.

We used the Spectralis™ SD-OCT (Heidelberg Engineering®, Heidelberg, Germany) for all patients. OCT images were acquired after pupil dilation with one drop of 0.5% Tropicamide and one drop of 10% Phenylephrine. A dense macular cube scan was performed using B-scans passing through the entire surface of the macular hole. A central horizontal B-scan passing through the center of the macula and the macular hole was performed to measure diameters and tomographic indices. All OCT scans were performed by a single trained and qualified physician.

Surgical technique

All patients were operated on by the same experienced surgeon. The surgery involved a 23-gauge three-port posterior vitrectomy with induction of posterior vitreous detachment under chro-

movitrectomy, followed by systematic verification of the retinal periphery by indentation to detect iatrogenic tears. A subtotal vitrectomy was performed in all patients. The classic inverted flap technique was adopted as the surgical technique, consisting of peeling the pre-stained internal limiting membrane (ILM) using Brilliant Blue G (BBG or Internal Limiting Membrane blue). The flap peeling was performed over approximately 2 papillary diameters radius around the macular hole (maculorhexis), while maintaining attachment to the edges of the macular hole over 360 degrees. Subsequently, the first part of the ILM flap was inverted in an atraumatic manner using the vitreotome, so that the vitreous face of the ILM was deposited on the macular hole, followed by application of the second part of the flap over the first. (**Figure 1**). Internal tamponade was achieved using a non-expansive gas mixture of 20% SF₆ (Sulfur Hexafluoride). Postoperatively, the patient was advised to position the face downwards for a minimum of 7 hours per day for 5 days.

Follow-up

All patients underwent regular postoperative follow-up at 1 month, 3 months, 6 months, and 9 months after surgery to measure BCVA in decimal fraction (Snellen chart) converted to Log-MAR.

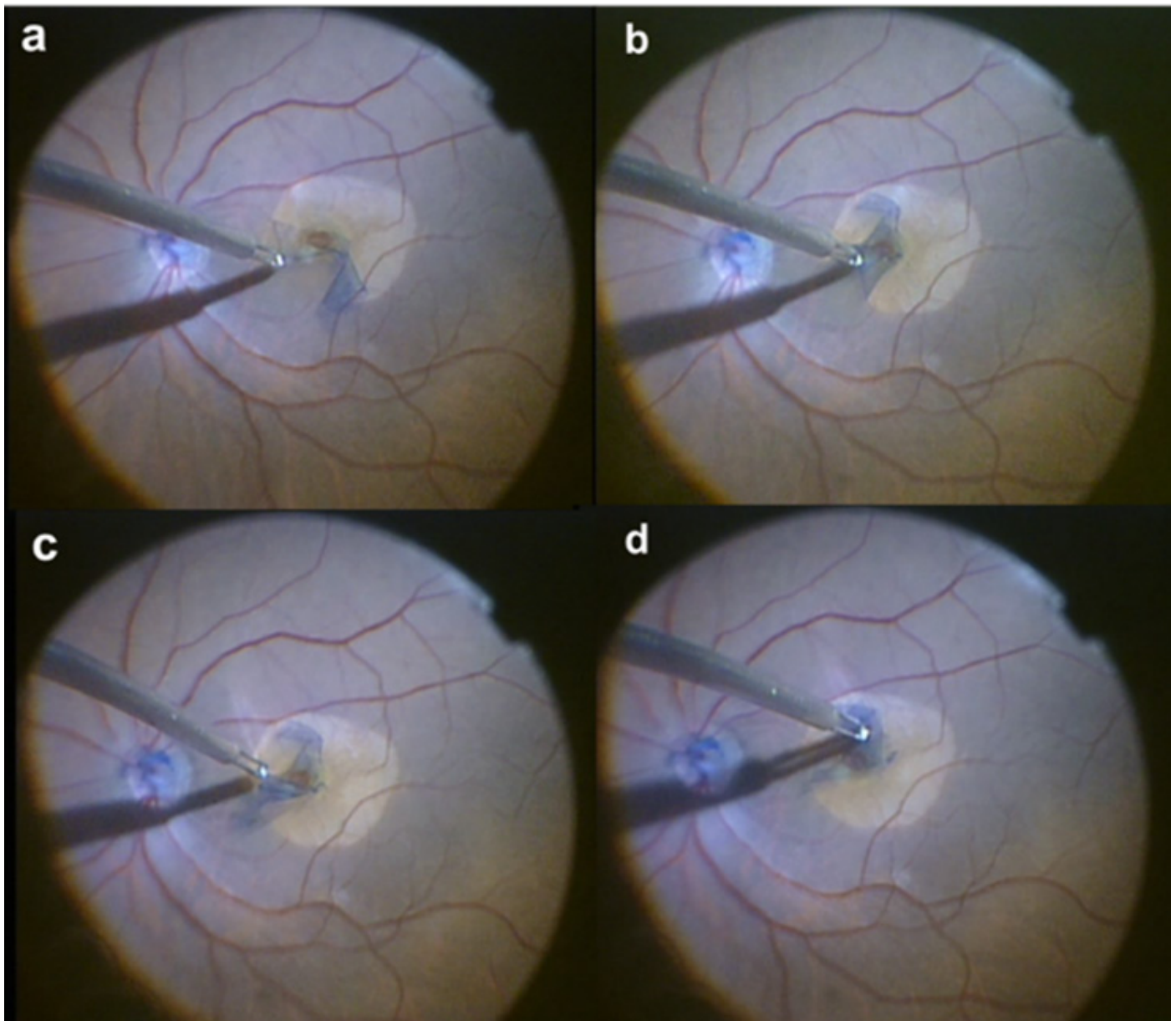


Figure 1. Steps of the classic inverted flap technique (a) Peeling and inversion of the first internal limiting membrane flap; (b) Peeling of the second flap; (c, d) Inversion of the second flap above the first.

We defined functional success as an improvement of 2 or more Snellen lines of BCVA. A minimum follow-up of 9 months was deemed necessary to evaluate final functional outcomes and clinically evaluate the degree of macular hole closure. An SD-OCT was performed at 1 month, 3 months, 6 months, and 9 months after surgery to evaluate the postoperative anatomical result. Tomographic closure of the MH was defined as the restoration of all or part of the retinal layers above the pigment epithelium in a continuous or discontinuous manner. We defined closure failure as the non-restoration of continuity between the two edges of the MH. We studied the integrity of the external limiting membrane (ELM) and the ellipsoid zone (EZ) in patients who had MH closure after surgery. The outer retinal layers of the ELM and EZ were defined as intact if a continuous hyperreflective line was displayed in SD-OCT, disrupted if any hyoreflective discontinuity was detected or was absent. SPSS software version 26 was used for statistic analysis. A p-value less than 0.05 was considered statistically significant.

Results

Forty eyes of 40 patients were included in this study. The mean age of our patients was 65.97 ± 4.7 years with a range from 47 to 76 years. Twenty-seven patients were female (68%) with a sex ratio of 1:2. At baseline, BCVA ranged from 1.60 to 0.7 LogMAR with a mean of 1.26 ± 0.35 LogMAR. The mean diameter of the macular hole at baseline was $655.48 \pm 167.16 \mu\text{m}$ with a range from 401 to 950 μm . A macular hole size of $\geq 600 \mu\text{m}$ was present in 50% of the operated eyes. The mean BCVA 1 months and 3 months after surgery was 1.07 ± 0.29 LogMAR [range: 0.50 - 1.60 LogMAR] and 0.96 ± 0.34 LogMAR [range: 0.40 - 1.50 LogMAR].

The mean BCVA 6 months and 9 months after surgery was 0.74 ± 0.42 LogMAR [range: 0.20 - 1.30 LogMAR] and 0.69 ± 0.42 LogMAR [range: 0.20 - 1.30 LogMAR] (Figure 2). We evaluated the final BCVA at 9 months postoperatively in patients with MH closure compared to preoperative BCVA. An improvement in BCVA was

observed in all patients to varying degrees. The mean visual gain was 0.72 ± 0.36 LogMAR, with a range of 0.30 to 1.40 LogMAR. Functional success (improvement in BCVA of 2 or more Snellen lines) was observed in 80% of the operated eyes. Initial closure was achieved in 36 eyes (90%) and was maintained until 9 months of follow-up (Figures 3,4).

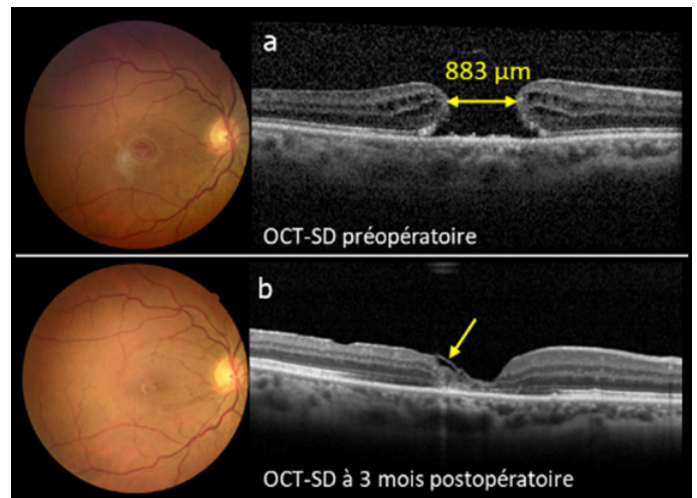


Figure 3. Illustration of closure of a large idiopathic macular hole operated using the inverted flap technique. (a) Fundus photograph and SD-OCT scan showing an 883 μm idiopathic macular hole in a 63-year-old female patient; (b) Fundus photograph and SD-OCT scan at 3 months postoperative showing closure of the hole and the inverted internal limiting membrane flap visible temporarily (yellow arrow).

At 1 month postoperative, 50% of operated eyes had a continuous external limiting membrane (ELM). At 9 months, complete regeneration of the ELM was observed in 30 eyes, representing 83% of cases. Two percent of operated eyes had complete regeneration

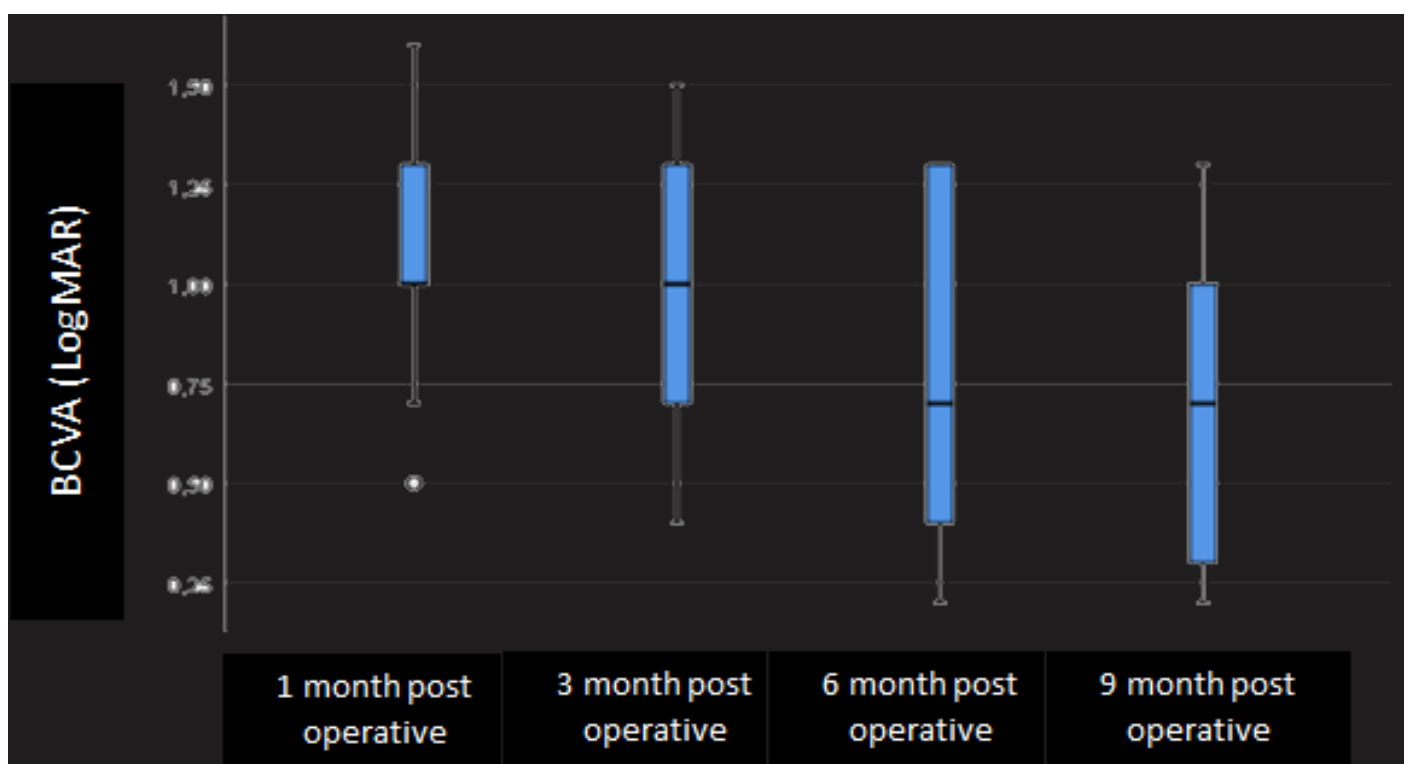


Figure 2. Distribution of operated eyes according to the best-corrected visual acuity in LogMAR at 1, 3, 6 and 9 months post-operatively.

BCVA: Best-corrected visual acuity

LogMAR: Logarithm of the minimum angle of resolution.

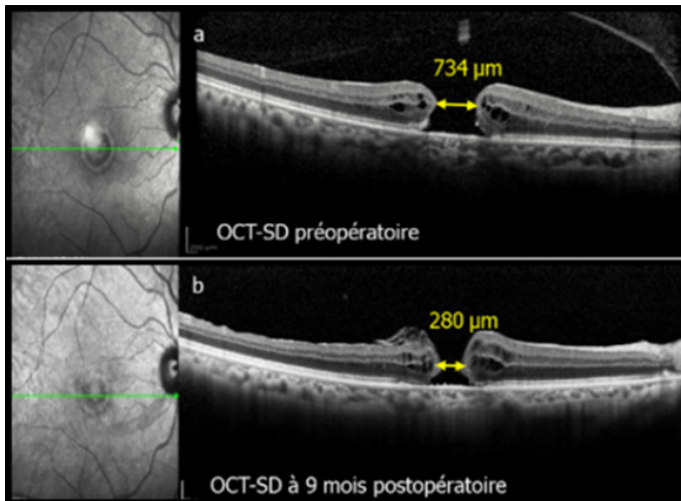


Figure 4 : SD-OCT sections illustrating the failure to close a large idiopathic macular hole. (a) Preoperative SD-OCT showing a 734 µm macular hole in a 67-year-old patient with a best-corrected visual acuity (BCVA) of 1.7 LogMAR; (b) SD-OCT at 9 months postoperative showing no closure of the hole with a decrease in its size, BCVA of 1.3 LogMAR.

of the ellipsoid zone at 1 month postoperative. This percentage increased to 50% at 6 months of follow-up and reached 64% at 9 months. We found that regeneration of the ellipsoid line was always associated with restoration of ELM continuity (Figure 5). In addition, our statistical study found a statistically significant correlation between the integrity of the outer limiting membrane and postoperative BCVA at 1 month, 3 months, 6 months, and 9 months. Indeed, eyes with complete regeneration of the outer limiting membrane had the best visual acuity (Table I). Moreover, we did find a strong statistically significant association between the integrity of the ellipsoid zone and postoperative BCVA with $p < 0.0001$. Indeed, patients who had complete regeneration of this layer had better BCVA than those with a disrupted ellipsoid zone. Similarly, patients with a disrupted ellipsoid zone had better BCVA than those with a completely absent regeneration of the ellipsoid zone after surgery. This result was observed at 3 months, 6 months, and 9 months postoperatively (Figure 6).

Discussion

The inverted ILM-Flap technique is a surgical approach for closing LMH that has a high success rate. The technique involves using the ILM-flap as a scaffold to promote the proliferation and migration of activated Müller cells, which help to close the macular hole. This technique provides an environment for photoreceptors to the regrow in the correct position during the reconstruction process and ultimately improve postoperative visual acuity [1]. In our series, an improvement in visual acuity was found in 100% of cases of successfully operated eyes. The average visual gain was 0.72 ± 0.36 LogMAR. We noted a functional success (improvement of the best-corrected visual acuity by 2 or more lines of Snellen) in 80% of cases. In the systematic review published by Chufeng Gu et al in 2017, an improvement in visual acuity in patients operated by the inverted flap technique was recorded in 95% [7]. Michalewska et al, in 2 series published in 2010 and 2015, found a statistically significant improvement in postoperative visual acuity in 100% of cases with both surgical techniques, namely the classic inverted flap and the temporal inverted flap [5,8]. Sborgia et al [9] found that a major improvement in visual acuity was achieved as early as one and three months after vitrectomy. This trend towards visual improvement could be achieved independently of the recovery of the outer layers of the retina at the fovea, which seems to occur after at least three months of the surgical intervention.

Purtskhvanidze et al [10] studied the long-term anatomical and functional outcomes after reparative MH surgery. They found that visual acuity continues to improve several years after surgery (mean follow-up duration 54 ± 20 months). However, in a retrospective study including 26 eyes, Kim et al [11] found a continuous improvement in visual acuity during the first 6 months following MH surgery, followed by stabilization thereafter. In our study, we recorded a macular hole closure rate of 90%. Michalewska et al, using the classic inverted flap technique for large macular holes, reported a closure rate of 100% [5]. Moreover, Chufeng et al, through a systematic literature review, showed a macular hole closure rate with the classic inverted

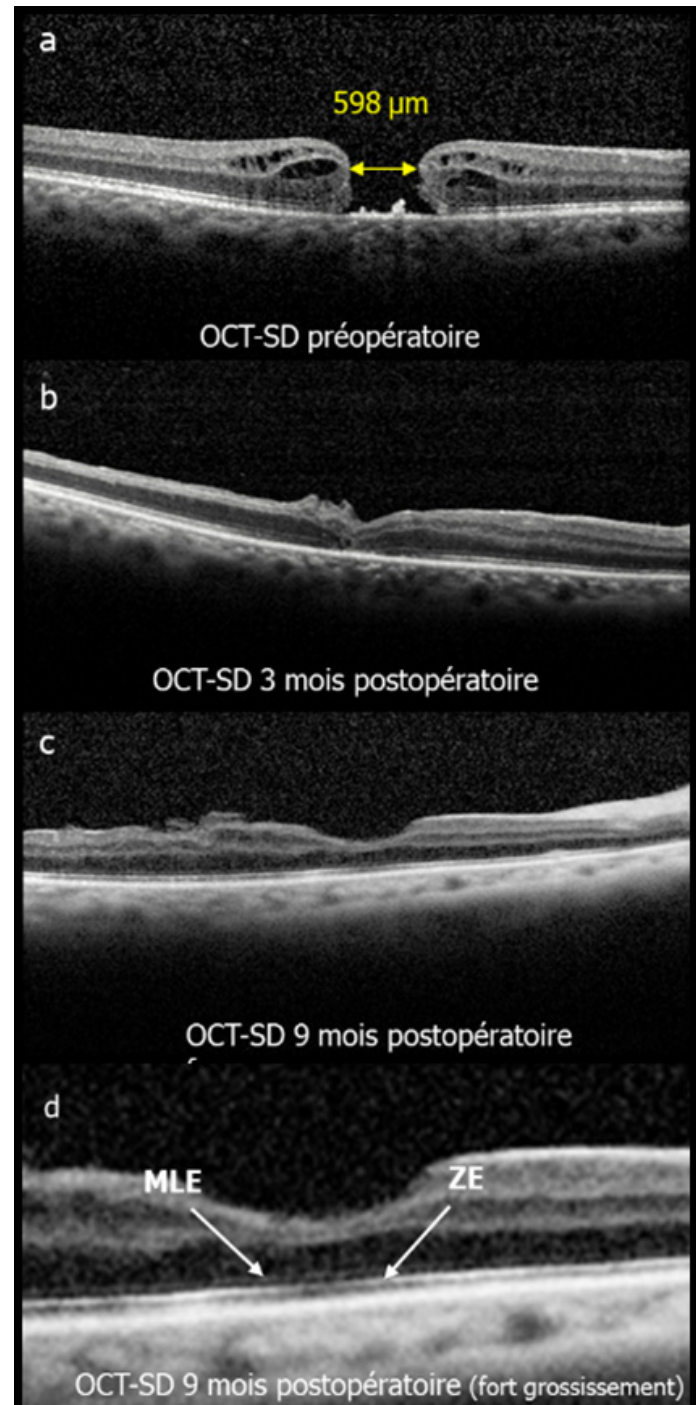


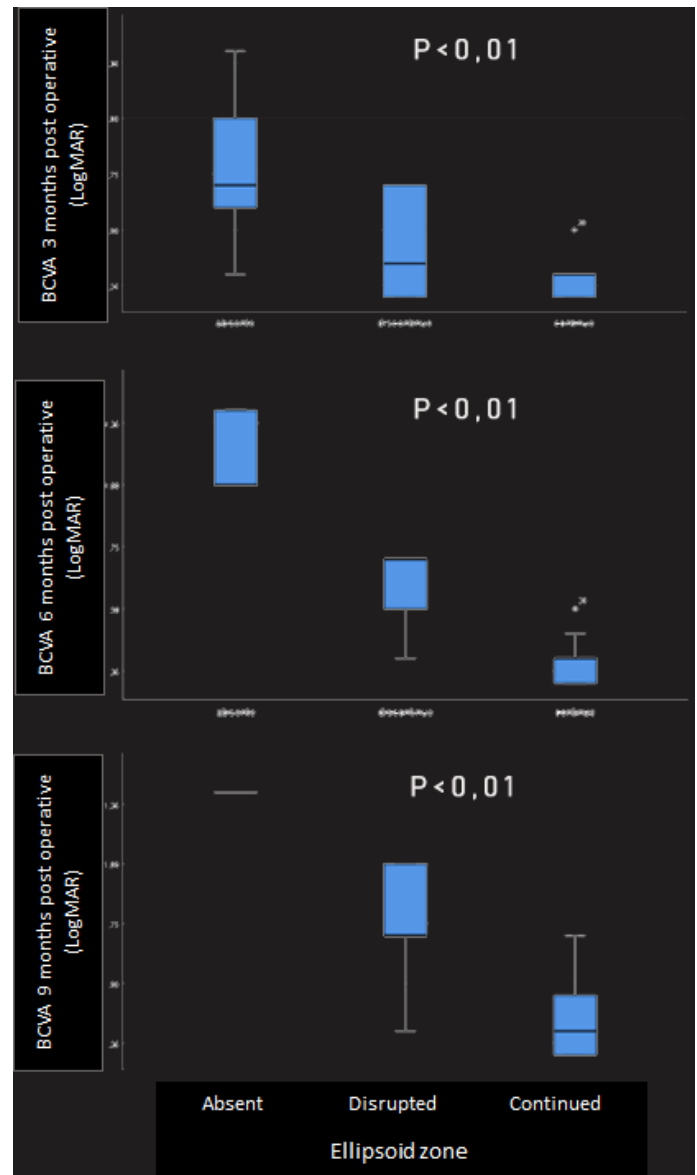
Figure 5 : Illustration of the closure of a large idiopathic macular hole and complete postoperative regeneration of the outer retinal layers. (a) Preoperative SD-OCT showing a 598 µm idiopathic macular hole in a 65-year-old patient; (b) 3-month postoperative SD-OCT showing closure of the hole with incomplete regeneration of the external limiting membrane (ELM) while the ellipsoid zone (EZ) is absent; (c-d) 9-month postoperative SD-OCT showing complete regeneration of the ELM and EZ.

Table I. Distribution of mean postoperative best-corrected visual acuity according to the integrity of the outer limiting membrane.

MLE	BCVA (LogMAR) 1 month postop	BCVA (LogMAR) 3 months postop	BCVA (LogMAR) 6 months postop	BCVA (LogMAR) 9 months postop
Absent	0.80	1.20	1.20	1.30
Disrupted	0.62	0.65	1.00	1.00
Continued	0.32	0.36	0.40	0.40
P	<0.001	0.045	<0.001	<0.001

flap technique ranging from 80 to 100% [7]. In a non-randomized retrospective comparative study on a series of 320 patients, Rizzo et al studied the macular hole closure rate by comparing the simple internal limiting membrane (ILM) peeling technique and the inverted flap technique, and found a closure rate of 91.93% with the latter [12]. In a recent study discussing microperimetric changes during classic inverted flap technique, published in 2019 by Sborgia et al, the closure rate of large macular holes was 98% [9]. Narayanan et al [13], in a recent study published in 2019, evaluated the closure rate of large macular holes operated with the classic inverted flap technique. They recorded a closure rate of 88.9%. Description of the characteristics and baseline are summarized in **Table II**.

In our series, at 9 months postoperative, we observed complete regeneration of the ellipsoid zone (EZ) in 64% of cases. It was discontinuous in 30% of cases and completely absent in only 6% of cases. For the external limiting membrane (ELM), at 9 months after surgery, complete regeneration was observed in 83% of cases. We noted that the regeneration of the ellipsoid zone is always associated with a restoration of ELM continuity. We also found a strong correlation between the integrity of the outer retinal layers (EZ and ELM) and postoperative visual acuity (VA). Our results are consistent with those reported by several recent studies [17-21]. Morawski et al [22] studied the foveal microstructure by OCT after MH closure. They conducted a study on 38 eyes with IMH treated with the inverted flap technique. The authors evaluated the integrity of the outer retinal layers 6 months after surgery. They noted complete restoration of ELM in 66% of cases and EZ in 58% of cases. Goker et al [19] studied the recovery of the ellipsoid zone in SD-OCT after treatment with vitrectomy and internal limiting membrane peeling for large macular holes. In a series of 30 eyes, they evaluated the length of the portion of the ellipsoid zone showing alterations or interruptions on OCT, as well as functional recovery at 1 month and 24 months after surgery. The authors noted a continuous regression of ellipsoid zone alterations between the 1st and 24th months. At this time, complete regeneration was present in only 1/3 of the patients. They also found that visual recovery is significantly related to EZ integrity. The regeneration of EZ is generally preceded by the restoration of ELM [19,23,24]. According to Landa et al [25] and Kitao et al [23] the integrity of ELM can predict subsequent restoration of EZ and better visual outcome. In the literature, we noted a divergence among series on the effect of the inverted flap technique on microstructural changes in the postoperative period. In a series of 26 eyes with a wide macular hole, Iwasaki et al. [26] studied the process of restoring the external retinal layers by comparing the simple technique of peeling the internal limiting membrane with that of the inverted flap technique. They found that the latter delayed the restoration of continuity of the

**Figure 6.** Correlation between postoperative visual acuity and ellipsoid zone regeneration.

BCVA: Best-Corrected Visual Acuity
LogMAR: Logarithm of the Minimum Angle of Resolution;
p: Degree of significance

external limiting membrane (ELM) was more frequent in eyes operated on with vitrectomy and simple peeling of the internal limiting membrane. However, in a recent series including a larger number of patients (117 eyes of 117 patients) with a wide macular hole, Baumann et al. [27] found different results when comparing the two techniques. They found better regeneration of the EZ in patients operated on with the inverted flap technique after 12 months of surgery. Ghassemi et al. [28] compared different variations of the inverted flap technique. The results of their study showed that there was no significant difference between the types of inverted flap surgery and regeneration of the EZ. They found EZ regeneration in 52.4% of eyes operated on by the superior inverted flap technique, in 47.6% in patients operated on by the classic inverted flap technique, and in 56% in those operated on by the temporal inverted flap technique at 6 months after surgery. In addition, ELM regeneration was found in 71.4% of those operated on by the temporal inverted flap technique, in 66% of those operated on by the classic inverted flap technique, and in 72% of those operated on by the superior inverted flap technique. To date, there are no definitive conclusions on the influence of surgical technique on the process of restoring the external layers of the retina. This study, so far as we know, the

Table II. Results of surgery for large macular holes with the inverted flap technique according to studies.

Authors (years)	Type de l'étude	Eyes number	MH Diameter (µm)	Closure rate	Preop VA (LogMAR)	VA postop (LogMAR)	Follow-up (months)
Kannan et al (2018) [14]	prospective randomized	30	803±120	90%	0,75±0,22	0,53±0,20	6
Yamashita et al (2018) [16]	retrospective	60	624±128	100%	0,98±0,30	0,51±0,34	6
Sborgia et al (2019) [9]	prospective	23	511±129	98%	1,06±0,34	0,47±0,45	12
Narayanan et al (2019) [16]	retrospective	18	577±159	88,9%	1,13±0,66	0,77±0,30	6
Ramtohol et al (2020) [54]	retrospective	23	657±172	96%	0,98±0,22	0,45±0,25	6
Our study (2021)	prospective	40	655±167	90%	1,26±0,35	0,69±0,42	9

MH : Macular Hole ; preop VA : Preoperative Visual Acuity ; postop VA : Postoperative Visual Acuity

first Tunisian study to evaluate the anatomical and visual outcomes of inverted flap technique of peeling of internal limiting membrane for large IMH. In addition, surgery was performed using the same instrumentation and surgical technique. Nonetheless, the research has certain constraints that require prudence when referencing the results. The number of eyes collected during our study was not significant. In fact, the final number of patients included was 40, which is still relatively small to draw conclusions. The average follow-up duration of 9 months may be considered insufficient in some cases (the literature reports continuous remodeling of the different retinal layers that can last up to 39 months).

Conclusion

The inverted internal limiting membrane (ILM) flap technique is a safe and effective method for treating large idiopathic macular holes (MH), with positive short-term and long-term outcomes. The technique was found to increase the closure rates and improve visual acuity in patients. However, more extensive randomized controlled trials are needed to minimize surgical complications and fully understand the mechanism of the ILM flap technique.

References

- [1]. Gass JD. Idiopathic senile macular hole: its early stages and pathogenesis. *Arch Ophthalmol*. 1988;106(5):629-39.
- [2]. McCannel CA, Ensminger JL, Diehl NN, Hodge DN. Population-based incidence of macular holes. *Ophthalmology*. 2009;116(7):1366-9.
- [3]. Steel DW, Lotery AJ. Idiopathic vitreomacular traction and macular hole: a comprehensive review of pathophysiology, diagnosis, and treatment. *Eye*. 2013;27 Suppl 1:1-21.
- [4]. Kelly NE, Wendel RT (1991) Vitreous surgery for idiopathic macular holes: results of a pilot study. *Arch Ophthalmol* 109:654-659.
- [5]. Michalewska Z, Michalewski J, Adelman RA, Nawrocki J (2010) Inverted internal limiting membrane flap technique for large macular holes. *Ophthalmology* 117(10):2018-2025.
- [6]. Vieregge M, Valmaggia C, Scholl H, Guber J (2018) Microstructural retinal regeneration after internal limiting membrane flap surgery for repair of large macular holes: a 1-year follow-up study. *Int Ophthalmol* 39:1277-1282.
- [7]. Gu C, Qiu Q. Inverted internal limiting membrane flap technique for large macular holes: a systematic review and single-arm meta-analysis. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol*. 2018;256(6):1041-9.
- [8]. Michalewska Z, Michalewski J, Dulciewska C, Cichecka K, Adelman RA, Nawrocki J. Temporal inverted internal limiting membrane flap technique versus classic inverted internal limiting membrane flap technique: a comparative study. *Retina*. 2015;35(9):1844-50.
- [9]. Sborgia G, Niro A, Sborgia A, Albano V, Tritto T, Sborgia L, et al. Inverted internal limiting membrane-flap technique for large macular hole: a microperimetric study. *Int J Retina Vitreous*. 2019;5:44.
- [10]. Purtskhvanidze K, Treumer F, Junge O, Hedderich J, Roeder J, Hillenkamp J. The long-term course of functional and anatomical recovery after macular hole surgery. *Invest Ophthalmol Vis Sci*. 2013;54(7):4882-91.
- [11]. Kim SH, Kim HK, Yang JY, Lee SC, Kim SS. Visual recovery after macular hole surgery and related prognostic factors. *Korean J Ophthalmol*. 2018;32(2):140-6.
- [12]. Rizzo S, Tartaro R, Barca F, Caporossi T, Bacherini D, Giansanti F. Internal limiting membrane peeling versus inverted flap technique for treatment of full-thickness macular holes: a comparative study in a large series of patients. *Retina*. 2018;38 Suppl 1:73-8.
- [13]. Narayanan R, Singh SR, Taylor S, Berrocal MH, Chhablani J, Tyagi M, et al. Surgical outcomes after inverted internal limiting membrane flap versus conventional peeling for very large macular holes. *Retina*. 2019;39(8):1465-9.
- [14]. Yamashita T, Sakamoto T, Terasaki H, Iwasaki M, Ogushi Y, Okamoto F, et al. Best surgical technique and outcomes for large macular holes: retrospective multicentre study in Japan. *Acta Ophthalmol*. 2018;96(8):904-10.
- [15]. Kannan NB, Kohli P, Parida H, Adenuga OO, Ramasamy K. Comparative study of inverted internal limiting membrane (ILM) flap and ILM peeling technique in large macular holes: a randomized-control trial. *BMC Ophthalmol*. 2018;18(1):177.
- [16]. Ramtohol P, Parrat E, Denis D, Lorenzi U. Inverted internal limiting membrane flap technique versus complete internal limiting membrane peeling in large macular hole surgery: a comparative study. *BMC Ophthalmol*. 2020;20(1):11.
- [17]. Sugiura Y, Okamoto F, Okamoto Y, Hiraoka T, Oshika T. Relationship between metamorphopsia and intraretinal cysts within the fluid cuff after surgery for idiopathic macular hole. *Retina*. 2017;37(1):70-5.
- [18]. Wakabayashi T, Fujiwara M, Sakaguchi H, Kusaka S, Oshima Y.

Foveal microstructure and visual acuity in surgically closed macular holes: spectral-domain optical coherence tomographic analysis. *Ophthalmology*. 2010;117(9):1815-24.

[19]. Goker YS, Demir G, Tekin K, Ucgul Atilgan C. Optical coherence tomography analysis of the recovery of the ellipsoid zone after macular hole surgery: 2-year results. *J Fr Ophthalmol*. 2019;42(9):987-92.

[20]. Kim Y, Kim ES, Yu SY, Kwak HW. Age-related clinical outcome after macular hole surgery. *Retina*. 2017;37(1):80-7.

[21]. Yılmaz Tuğan B, Karabaş L, Yenihayat F, Subaşı S, Kesim E, Özkan B. Correlation of visual recovery and increased ellipsoid zone reflectivity after successful macular hole surgery. *Turk J Ophthalmol*. 2020;50(5):283-7

[22]. Morawski K, Jędrychowska Jamborska J, Kubicka Trzaska A, Romanowska Dixon B. Swept-source optical coherence tomography to determine the recovery of retinal layers after inverted internal limiting membrane flap technique for macular hole: correlation with visual acuity improvement. *Retina*. 2019;39(11):2099-106.

[23]. Zou JL, Zeng J. The macular microstructure repair and predictive factors of surgical outcomes after vitrectomy for idiopathic macular hole. *Int J Ophthalmol*. 2019;12(5):852-7.

[24]. Kitao M, Wakabayashi T, Nishida K, Sakaguchi H, Nishida K. Long-term reconstruction of foveal microstructure and visual acuity after idiopathic macular hole repair: three-year follow-up study. *Br J Ophthalmol*. 2019;103(2):238-44.

[25]. Landa G, Gentile RC, Garcia PT, Muldoon TO, Rosen RB. External limiting membrane and visual outcome in macular hole repair: spectral domain OCT analysis. *Eye*. 2012;26(1):61-9.

[26]. Iwasaki M, Kinoshita T, Miyamoto H, Imaizumi H. Influence of inverted internal limiting membrane flap technique on the outer retinal layer structures after a large macular hole surgery. *Retina*. 2019;39(8):1470-7.

[27]. Baumann C, Kaye S, Iannetta D, Sultan Z, Dwivedi R, Pearce I. Effect of inverted internal limiting membrane flap on closure rate, postoperative visual acuity, and restoration of outer retinal layers in primary idiopathic macular hole surgery. *Retina*. 2020;40(10):1955-63.

[28]. Ghassemi F, Khojasteh H, Khodabande A, Dalvin LA, Mazloumi M, Riazi Esfahani H, et al. Comparison of three different techniques of inverted internal limiting membrane flap in treatment of large idiopathic full-thickness macular hole. *Clin Ophthalmol*. 2019;13:2599-606.

FAITS CLINIQUES

Infectious complications of open globe injuries with vegetal intraocular foreign bodies

Complications infectieuses des traumatismes à globe ouvert avec corps étranger végétal intraoculaire

Zgolli Hsouna, Abdelhedi Chiraz*, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila.

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

Key-words intraocular foreign body; vegetal; infections; open globe injury	Abstract <p>Purpose. This study aims to discuss the risk factors, microbiological microorganisms, and therapeutic strategies for infectious complications associated with intraocular vegetal foreign bodies.</p> <p>Methods. Nous avons réalisé une étude retrospective, analytique et comparative incluant 100 patients qui ont été opérés d'ésotropie concomitante. Cinquante cas ont été inclus respectivement dans le groupe Cuppers (Cu) et le groupe chirurgie classique (CC). Les angles pré et post opératoire ont été mesurés aux prismes. Chaque groupe a été divisé en 2 sous-groupes homogènes en selon la valeur de l'angle préopératoire. L'angle post opératoire a été évalué à 3, 12 et 18 mois de suivi. Le succès chirurgical a été défini par un angle post opératoire ≤ 10 Dp.</p> <p>Results. Five cases were identified during the study period. The first case involved endophthalmitis secondary to an open globe injury with an intraocular wooden foreign body. The second case was a subretinal abscess caused by a penetrating vegetal spine. The third case was a panophthalmitis complicating an open globe injury with a posterior vegetal intraocular foreign body. The fourth and fifth patients developed endophthalmitis as a complication of a corneal spine wound</p> <p>Conclusion. Infections resulting from vegetal intraocular foreign bodies represent a severe complication and pose a significant threat to visual function, often leading to a reserved prognosis.</p>
--	--

Mots-clés Orbite, phtyose, kécorps étranger intraoculaire, végétal, infections, plaie à globe ouvert	Résumé <p>Objectif. Cette étude vise à discuter les facteurs de risque, le profil microbiologique et les stratégies thérapeutiques des complications infectieuses liées aux corps étrangers intraoculaires végétaux.</p> <p>Méthodes. Une étude prospective a été menée sur une série de patients hospitalisés et pris en charge dans le service A de l'Institut Hedi Raies d'Ophthalmologie de Tunis pour des corps étrangers intraoculaires végétaux entre mars 2020 et mars 2021.</p> <p>Résultats. Cinq cas ont été recensés. Le premier cas était une endophtalmie secondaire à une lésion à globe ouvert avec un corps étranger intraoculaire en bois. Le deuxième cas était un abcès sous-rétinien causé par une épine végétale pénétrante. Le troisième cas était une panophtalmie compliquant une lésion à globe ouvert avec un corps étranger intraoculaire végétal postérieur. Les quatrième et cinquième patients ont développé une endophtalmie en complication d'une plaie cornéenne.</p> <p>Conclusion. Les complications infectieuses liées aux corps étrangers intraoculaires végétaux sont des complications sévères qui représentent une menace importante pour la fonction visuelle, avec un pronostic réservé.</p>
--	---

Introduction

Open globe injury is a leading cause of visual morbidity and blindness, particularly affecting the working population and leading to a significant economic burden [1,2]. Intraocular foreign bodies (IOFBs) are associated with open globe injuries in 18% to 41% of cases [2]. A considerable portion of these IOFBs (58% to 88%) lodge in the posterior segment [2], increasing the risk of visual loss and infectious complications. Vegetal intraocular foreign bodies resulting from open globe injuries pose specific challenges: firstly, they are difficult to detect by tomography as they can mimic air, secondly, they may expose the patient to a higher risk of infectious complications [3].

In this paper, we present a series of five cases involving open globe injuries with vegetal intraocular foreign bodies. Through these case observations, we explore the various types of infectious complications related to vegetal IOFBs.

Methods

The study was conducted in compliance with the principles out-

lined in the Declaration of Helsinki. Informed consent was obtained from all participants before their inclusion in the study. A prospective study was carried out, involving consecutive cases of patients hospitalized and managed in Department A of the Hedi Raies Institute of Ophthalmology in Tunis, who presented with complicated vegetal intraocular foreign bodies between March 2020 and March 2021. All patients were admitted following emergency consultations, and appropriate antibiotic therapy was initiated. The decision to perform vitrectomy was based on the progression of the condition under antibiotic treatment.

Results

Case 1

A 21-year-old man presented to our emergency room with ocular trauma. The patient accidentally sustained an injury to his left eye from being poked by a tree branch two hours before seeking medical attention. The ophthalmological examination revealed

*Corresponding author:

Chiraz Abdelhedi

E-mail: chirazabdelhedi1992@gmail.com

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology, Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

limited visual acuity with only light perception, a linear scleral wound measuring 2 mm in length, and clean edges. A piece of intravitreal tree branch was visible through the wound and the globe was slightly hypotonic. The cornea, iris, and lens appeared normal. Initial treatment involved emergency suturing of the sclera. Due to the difficulty of extracting the piece of tree branch through the wound, it was left in the vitreous cavity. However, three days after the surgery, the patient developed clinical endophthalmitis (**Figure 1a**). An immediate pars plana vitrectomy was performed,

during which the intraocular wood was removed through the sclera (**Figure 1b, c, d, f, g**). To prevent the risk of retinal detachment, silicone oil tamponade was used (**Figure 1h**). Intravitreal antibiotics were administered at the end of the vitrectomy. Both vitreous sampling and mycobacteriological examination of the vegetal spine revealed the isolation of *Staphylococcus aureus* sensitive to ceftriaxone (third-generation cephalosporin). The patient received broad-spectrum intravenous antibiotics and responded well to the treatment.

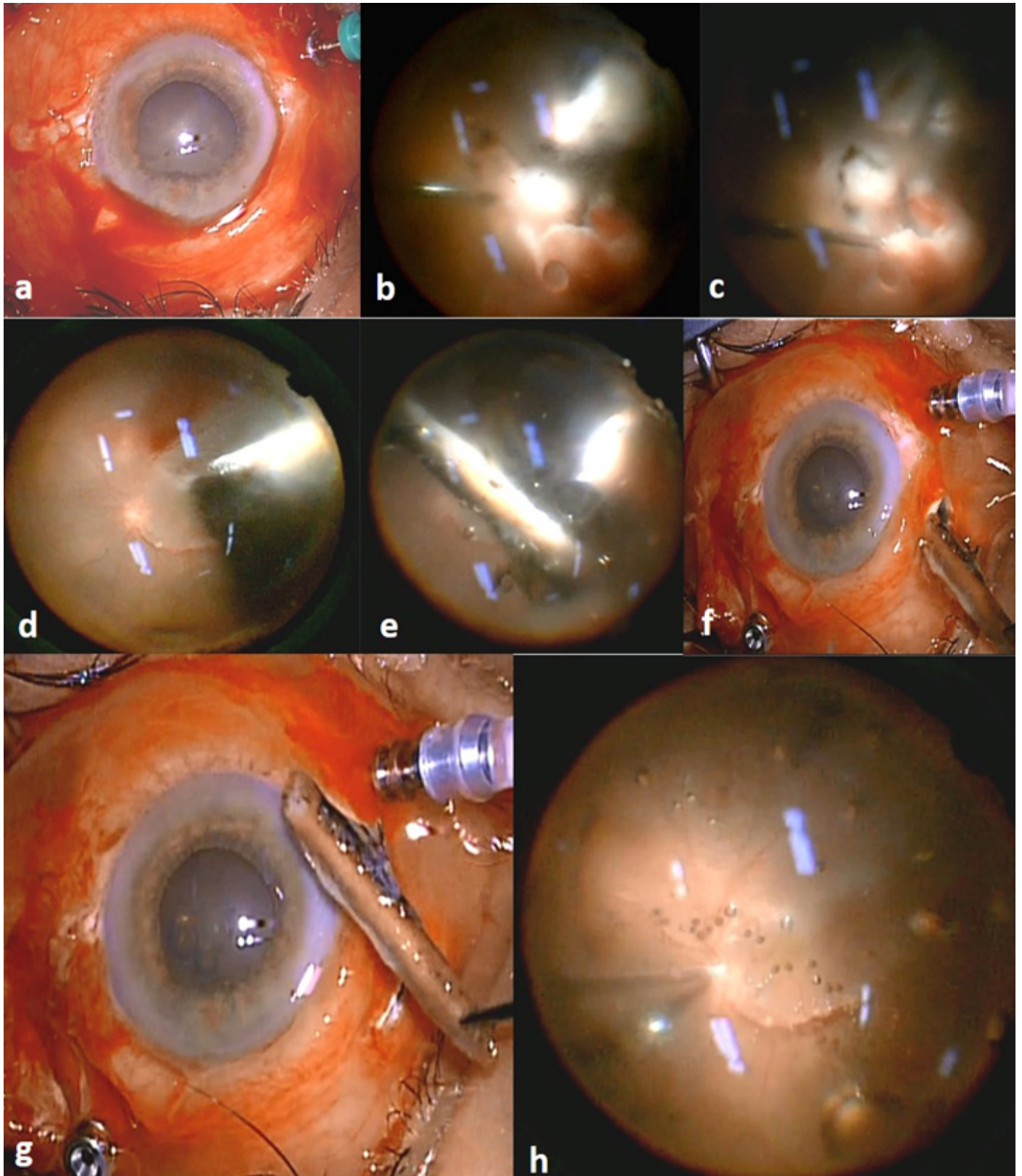


Figure 1. A 21-year-old man accidentally poked in the left eye with a tree branch. (a) clinical endophthalmitis; (b) central and peripheral vitrectomy. (c) posterior hyaloid dissection. (d,e,f,g) foreign body extraction with foreign body forceps by T sclerotomy. (h) silicone oil tamponade.

Case 2

A 46-year-old man presented to the emergency room with visual blurring in the left eye (LE). The patient reported being hit with hay four days ago. The visual acuity of the LE was 6/10. Slit-lamp examination of the LE revealed a temporal black spot located less than 4 mm from the limb, with a transparent cornea and a normal anterior chamber. On fundus examination, a deep whitish solid granuloma was observed in the upper nasal area, centered around a blackish head, and associated with superior retinal detachment (**Figure 2a**). A diagnosis of vegetal intraocular foreign body with retinal abscess was made. The patient received intravenous antifungal and antibiotics treatment. A pars plana

vitrectomy was performed 48 hours later. The procedure involved central vitrectomy, extraction of a hay thorn using forceps, and minimal aspiration of a greyish-gelatinous liquid from the granuloma (**Figure 2b**). Silicon oil tamponade was performed after aspirating the subretinal liquid through an iatrogenic retinal tear. Retinopexy of the tear and the granuloma was also carried out. The myco-bacteriological examination of the subretinal liquid revealed the presence of *Candida albicans*. The patient was prescribed oral fluconazole at a dose of 400mg daily for 10 days. The patient's condition showed significant improvement with good functional and anatomical outcomes, resulting in a final visual acuity of 8/10 and disappearance of the subretinal abscess, which was replaced by retinal atrophy.

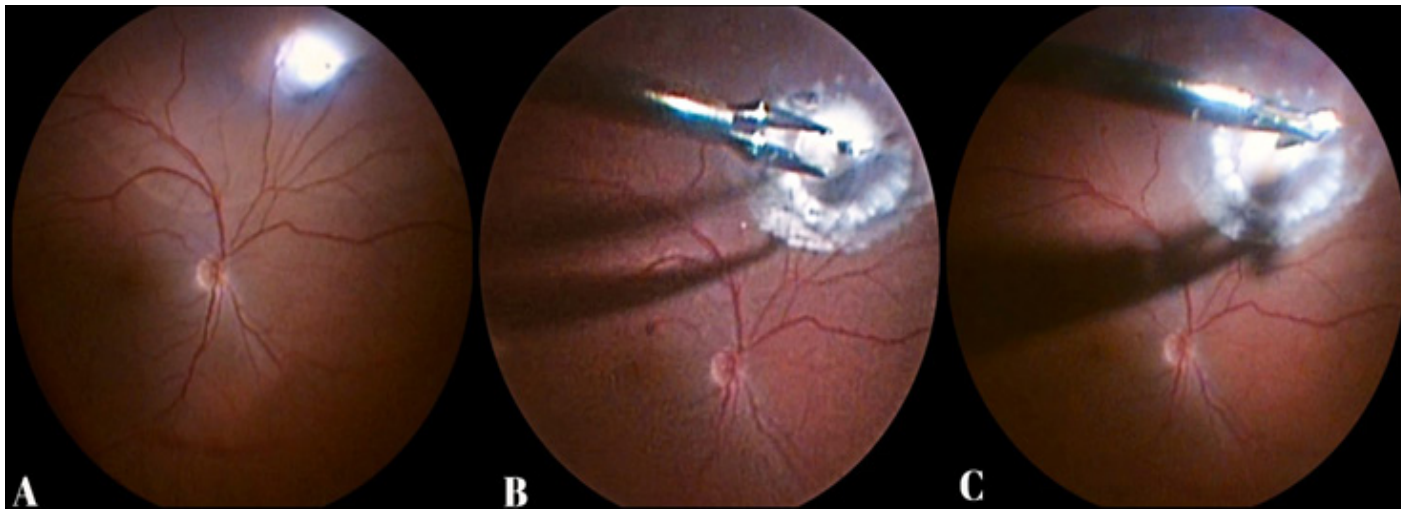


Figure 2. Retinal abscess. (A) deep, solid white granuloma reaching the inner layers of the retina, centered by a vegetal spine localized in the upper nasal periphery of the retina, associated to a localized retinal detachment. (B,C) With a 20G forceps, vegetal spine was extracted through sclerotomy.

Case 3

A 33-year-old man presented to the emergency room 12 hours after sustaining a penetrating ocular trauma to his right eye (RE) from a tree branch. Slit-lamp examination of the RE revealed inflamed eyelids, episcleritis, a soiled corneal wound, and hyphemia. The patient underwent immediate surgery, which included wound trimming, washing of the anterior chamber, aspiration of crystalline masses, and suturing of the corneal wound. Postoperative B-mode ultrasound revealed hyper-echogenicity in the vitreous (**Figure 3a**). The patient received immediate treatment with cefotaxime 1 gram every 8 hours, along with a fluoroquinolone and vancomycin, in addition to ceftazidime locally.

Two days after surgery, the patient developed a painful edema on the right side of his face with massive palpebral edema, exophthalmos, chemosis, and ophthalmoplegia (**Figure 3b, c**). An emergency CT scan was performed, confirming the diagnosis of post-traumatic panophthalmitis. An intravitreal foreign body was suspected based on the CT images. Despite aggressive intravenous antibiotics and eye drops, the patient's condition rapidly deteriorated, leading to the loss of light perception after 24 hours. Vitrectomy was performed, and a vegetal spine was extracted from the eye. A silicone oil tamponade was applied to preserve the integrity of the globe and prevent subsequent evisceration.

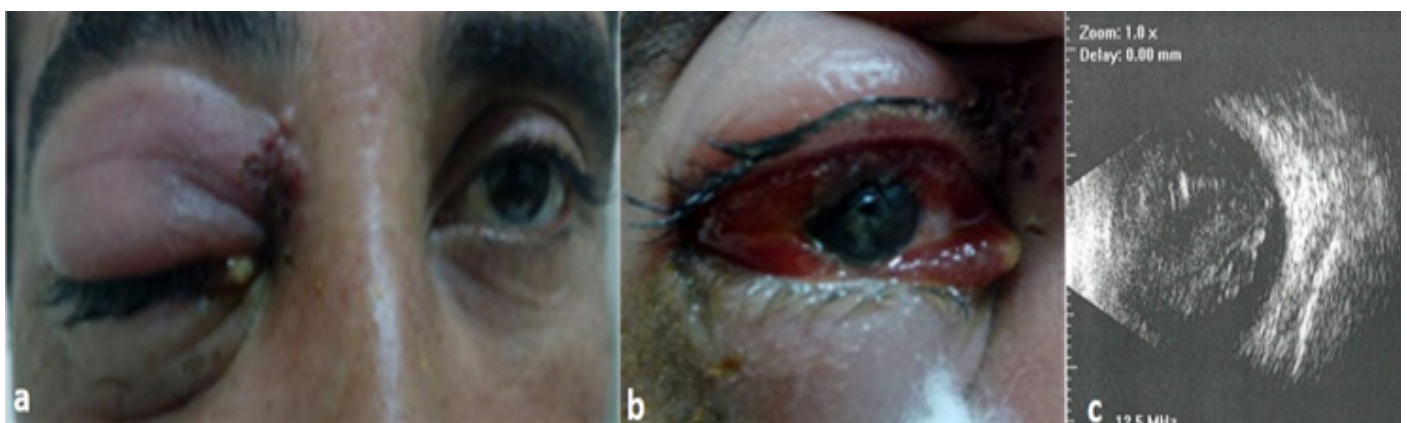


Figure 3. Panophthalmitis (a,b) Right hemifacial edema with a massive palpebral edema, exophthalmia, chemosis and ophthalmoplegia, (c) echography B showing hyper-echogenic vitreous with mounded intravitreal collections.

Case 4

A 66-year-old woman presented to the emergency room five days after sustaining a trauma to her right eye from a vegetal spine. Her visual acuity in the right eye (RE) was limited to light perception. Slit-lamp examination revealed a linear corneal wound approximately half the corneal diameter in size, athalasia, a cyclitic membrane, and dense cataract. The patient underwent emergency surgery, which involved simple suturing of the wound after trimming and washing the anterior chamber. The anterior capsule of the lens remained intact. Following the surgery, B-mode ultrasound showed a vitreous filled with debris but with an attached retina. Post-traumatic endophthalmitis was diagnosed, and the patient received prophylactic bi-antibiotherapy. Subsequently, a phacoaspiration procedure was performed with implantation of a foldable acrylic lens in the bag, and a 23 G vitrectomy was carried out with silicon oil tamponade. The vitreous sample revealed mycelial filaments. The patient was prescribed voriconazole 400mg per day for 10 days. One month after surgery, the visual acuity in the RE improved to 1/10 on the Snellen chart, and the fundus examination showed an attached retina.

Case 5: A 56-year-old man presented with a plant thorn lodged in his right eye. He had previously undergone cataract surgery and was pseudophakic. The examination revealed limited visual acuity, only able to perceive counting fingers, an inferior nasal corneal abscess measuring 1mm in diameter, and vitreous opacities (**Figure 4**). A sample was taken from the cornea, and the patient was put on general antibiotic therapy along with local eye drops containing vancomycin, ceftazidime, and voriconazole. After 48 hours, a vitrectomy was performed with silicon oil tamponade. The corneal sample showed the presence of *Candida albicans*. The patient was prescribed triflucon 400mg daily for 10 days and received amphotericin B six times daily. One month after surgery, following sterilization of the corneal abscess, the visual acuity had improved to 3/10 on the Snellen chart. There was a peripheral corneal scar, but the retina remained clean and attached.

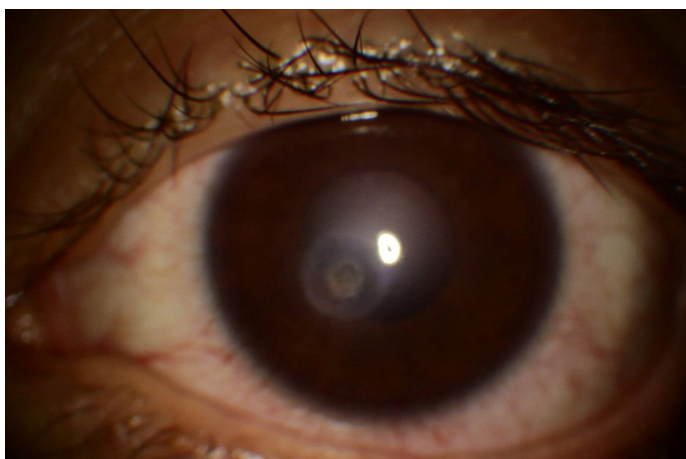


Figure 4. Intraocular deep corneal abscess

Discussion

We presented through this paper different figures of infectious complications related to intraocular wooden foreign bodies. IOFBs are a major cause of blindness [1]. Their surgical management remains a challenge for ophthalmologists, given their clinical characteristics and severe complications. The infectious complications, especially the endophthalmitis, a devastating complication of open globe injuries, can completely modify the visual prognosis despite rapid and adequate management [4]. Post traumatic endophthalmitis occurs in 2.7% to 17% of patients with open globe injuries [5]. It will be associated to an IOFB in 48% of cases [5,6]. In fact, the risk of endophthalmitis is great

with retained IOFB [4]. This rate is higher when the IOFB is composed of organic materials [2]. Furthermore, vegetal or wood intraocular foreign bodies associated to open globe injuries are considered as the main risk factors of post traumatic endophthalmitis [2,4]. Fungal or polymicrobial infections are mostly isolated in this concern [7]. However, Bhaduri and al. reported a case of vegetal IOFB, retained into the eye without any complications for 25 years [8]. This was due to a relatively inert foreign body [8]. Retinal abscess is typically defined as an endogenous endophthalmitis known for its poor functional and anatomical prognosis [9,10]. We reported the first case of an exogenous, fungal retinal abscess, related to a vegetal intraocular foreign body. Despite the retinal detachment associated to the abscess, the evolution was good after surgery with satisfying final visual acuity. According to the review of the literature, the subretinal abscess is a solitary, yellowish-white, circumscribed mass-like subretinal lesion associated with retinal hemorrhages and cellular vitreous reaction [10,11]. It is constantly associated to a general septicemia or a primary abscess (liver, lung, brain) [10]. Major risk factors of retinal abscess are immunodepression, diabetes, transplant recipient, patients with auto immune disease or under chemotherapy [12]. The causative microbiological organism is often a bacterium, including *Nocardia* asteroids, Gram-negative rods and *Streptococcus pneumoniae* [10]. Webber and al reported a case of subretinal abscess after lung transplantation. A *Pseudomonas aeruginosa* was isolated and the evolution was bad [13]. In our case, the isolated germ was a *Candida albicans*. Finally, the panophthalmitis, usually associated to intra-orbital foreign bodies, is a rare complication of an intraocular foreign body. It is considered as a dangerous infectious complication that can lead spontaneously to the enucleation. Weng and al reported the case of a chronic panophthalmitis caused by a vegetal IOFB. It was well treated by vitrectomy, extraction of the retinal vegetal spine and silicone oil tamponade with positive results [14]. However, the post traumatic panophthalmitis with vegetable IOFB, known as pyogenic aggressive infection, still an aggressive and devastating complication, which threatens not only the visual function but also the orbital integrity. The therapeutic attitude remains an emergency vitrectomy and extraction of the IOFB. The silicon oil tamponade is a must to prevent the recurrence of the infection. Large intravenous antibiotherapy is mandatorily associated to manage the post traumatic panophthalmitis [14,15].

Conclusion

In conclusion, this paper presented a case series of infectious complications associated with vegetal intraocular foreign bodies. The infections related to these foreign bodies are severe and pose a significant threat to visual function, with a reserved prognosis even after surgical intervention. Timely and appropriate management with an effective therapeutic strategy is crucial to achieve a satisfactory final visual recovery for these patients. The findings underscore the importance of early detection, prompt treatment, and vigilant post-operative care to minimize the impact of these infectious complications on visual outcomes. Further research and advancements in treatment modalities are needed to improve the overall management of intraocular foreign bodies and their related infections.

Disclosure statement

Declaration of conflicting interests

The author(s) declared no potential conflicts of interest with respect to the research, authorship, and/or publication of this article.

Funding

The authors received no financial support

References

1. Liu Y, Wang S, Li Y, Gong Q, Su G, Zhao J. Intraocular Foreign Bodies: Clinical Characteristics and Prognostic Factors Influencing Visual Outcome and Globe Survival in 373 Eyes. *J Ophthalmol*. 2019 Feb 13;2019: ID:5208092.
2. Loporchio D, Mukkamala L, Gorukanti K, Zarbin M, Langer P, Bhagat N. Intraocular foreign bodies: A review. *Surv Ophthalmol*. 2016 Sep–Oct;61(5):582–96.
3. Wen B, Cheng J, Zhang H, Zhang Y, Zhang X, Yan C, Zhang F. Characteristics of wooden intraocular foreign body by magnetic resonance imaging in rabbit. *J Int Med Res*. 2018 Nov;46(11):4717–4721
4. Andreoli CM, Andreoli MT, Kloek CE, Ahuero AE, Vavvas D, Durand ML. Low rate of endophthalmitis in a large series of open globe injuries. *Am J Ophthalmol*. 2009 Apr;147(4):601–608.
5. Bhagat N, Nagori S, Zarbin M. Post-traumatic Infectious Endophthalmitis. *Surv Ophthalmol* 2011;56(3):214–51
6. Asencio MA, Huertas M, Carranza R, et al. A case-control study of post-traumatic endophthalmitis at a Spanish hospital. *Int Ophthalmol*. 2015.
7. Kuhn F, Pieramici DJ. Endophthalmitis. In: Ferenc K, Pieramici, D, editor. *Ocular Trauma: Principles and Practice*. New York: Thieme; 2002. p. 293–300.
8. Bhaduri G, Ghosh A. Vegetative intraocular foreign body of 25 years' duration. *Indian J Ophthalmol*. 2003 Jun;51(2):184–5.
9. Pittenger B, Young JW, Mansoor AM. Subretinal abscess. *BMJ Case Rep*. 2017 Feb 24;2017.
10. Trigui A, Laabidi H, Khairallah M, Féki J. Retinal abscess: case report of an uncommon evolution. *Int Ophthalmol*. 2011 Aug;31(4):327–31.
11. Harris EW, D'Amico DJ, Bhisitkul R, Priebe GP, Petersen R. Bacterial subretinal abscess: a case report and review of the literature. *Am J Ophthalmol*. 2000; 129:778–785.
12. Eschle-Meniconi ME, Guex-Crosier Y, Wolfensberger TJ. Endogenous ocular nocardiosis: an interventional case report with a review of the literature. *Surv Ophthalmol*. 2011 Sep–Oct;56(5):383–415.
13. Webber SK, Andrews RA, Gillie RF, Cottrell DG, Agarwal K. Subretinal *Pseudomonas* abscess after lung transplantation. *Br J Ophthalmol*. 1995;79:861
14. Weng Y, Ma J, Zhang L, Jin HY, Fang XY. A presumed iridocyclitis developed to panophthalmitis caused by a non-metallic intraocular foreign body. *Int J Ophthalmol*. 2019 May 18;12(5):870–2.
15. Sohngen P, Blaise P, Duchesne B, Rakic JM. Clinical case of the month. Acute post traumatic panophthalmitis. *Rev Med Liege*. 2012 Sep;67(9):449–51.

FAITS CLINIQUES

Occlusion de l'artère centrale de la rétine en post-opératoire immédiat de vitrectomie pour décollement de rétine rhégmato-gène

Smaoui Siwar*, Zhioua Braham Imene, Boukari Mejdi, Mokrani Manel, Mili Ilhem, Zhioua Raja.

Service d'Ophtalmologie, Hôpital Charles Nicolle, Faculté de Médecine de Tunis, Université de Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

Introduction

L'occlusion de l'artère centrale de la rétine (OACR) est une complication rare, mais grave des chirurgies oculaires. La plupart des occlusions artérielles rétinienne (OAR) post-opératoires rapportées dans la littérature sont associées à la chirurgie de la cataracte, et principalement imputées à l'anesthésie rétro-bulbaire. Nous rapportons le cas d'une OACR survenue au premier jour (J1) post-opératoire d'une vitrectomie réalisée sous anesthésie générale (AG).

Observation

Il s'agit d'un patient de sexe masculin, âgé de 55 ans, ayant une myopie modérée, qui consulte aux urgences ophtalmologiques pour une baisse de vision (BAV) brutale de l'œil gauche (OG) avec perception d'un voile. L'interrogatoire retrouve des antécédents de myopie modérée de -2 dioptries aux deux yeux et d'hypertension artérielle bien équilibrée sous traitement médical. L'examen ophtalmologique retrouve à l'OG une acuité visuelle (AV) à 10/10 et un segment antérieur sans particularité avec notamment un cristallin transparent. Le fond d'œil (FO) dilaté révèle un décollement de rétine rhégmato-gène (DRR) inféro-temporal avec mise en évidence d'une déchirure postérieure rétroéquatoriale à clapet de 3-4 diamètres papillaires (DP) à 5h30, associée à une prolifération vitréo-rétinienne (PVR) stade B et une macula non décollée (Figure 1).



Figure 1. Photo du fond d'oeil gauche : DRR inféro-temporal avec déchirure à clapet postérieure rétroéquatoriale de 3-4 DP à 5h30 à bords enroulés (cercle jaune), associée à une macula non décollée.

L'examen de l'œil adelphe était sans anomalie notable. La prise en charge en urgence a consisté en une vitrectomie, une rétinopexie par endolaser et un tamponnement par huile de silicone. La procédure s'est déroulée sous AG avec un épisode d'hypotension artérielle per-opératoire à 70/40 mmHg rapidement maîtrisé. Un positionnement post-opératoire face vers le sol de courte durée a par ailleurs été indiqué. A J1 post-opératoire le patient a rapporté un scotome central. L'examen a retrouvé une AV à 1/10, une rétine à plat sous bulle de silicone complète et une pression intraoculaire (PIO) à 18 mmHg. Les détails de la macula étaient gênés par le reflet siliconique, mais laissait deviner une perte du reflet fovéolaire. La tomographie en cohérence optique (OCT) de la macula a montré une hyperréflexivité des couches internes et intermédiaire de la rétine, associée un discret décollement séreux rétinien (DSR) rétro-fovéolaire et une épaisseur maculaire centrale (EMC) à 262µm (Figure 2). Le contrôle tomographique à J10 post-opératoire objective la disparition de l'hyperréflexivité aux dépens d'un remaniement des couches internes rétinienne et un amincissement maculaire (EMC à 173µm) (Figure 2). L'AV était stable à 1/10, la PIO à 16mmHg, et le scotome central persistant rapporté par le patient. L'évolution à J20 post-opératoire retrouve une atrophie complète des couches rétinienne en OCT, et plusieurs zones d'hyposignal au niveau des plexus capillaires superficiel et profond en OCT-angiographie (OCT-A), témoignant d'une hypoperfusion artérielle (Figure 3). Le suivi ophtalmologique à 4 mois post-opératoire a montré en OCT une atrophie de toute la rétine centrale avec une EMC à 137µm, une désorganisation des différentes couches rétinienne maculaires et la persistance de zones d'hyposignal en OCT-A (Figure 3). L'AV finale était de 1/10 avec scotome central définitif. Les données tomographiques, notamment en OCT-A, ainsi que la mauvaise récupération fonctionnelle ont fait porter chez notre patient le diagnostic rétrospectif d'OACR survenue en post-opératoire immédiat.

Discussion

L'OACR est un accident vasculaire rétinien rare mais grave, compromettant sérieusement le pronostic visuel [1]. Le diagnostic peut être cliniquement évident en cas de ralentissement circulatoire franc, avec mise en évidence d'un blanchiment rétinien ischémique du pôle postérieur, d'une macula rouge cerise et d'un rétrécissement artériel. Ces signes sont parfois moins patents, comme le cas de notre patient, rendant le diagnostic plus difficile à établir. Ces formes frustes incomplètes ont largement bénéficié de l'apport de l'imagerie multimodale. L'angiographie à la fluorescéine confirme le diagnostic positif à la phase aigüe en objectivant l'absence ou un retard important au remplissage artériel. Celle-ci n'a pas été réalisée chez notre patient. En OCT, à la phase aigüe, l'hyperréflexivité des couches internes est un signe quasi-pathognomonique d'OAR, retrouvé dans 100% des cas [2]. D'autres signes sont également associés aux occlusions

Auteur correspondant:

Siwar Smaoui

e-mail : smaouiswar@gmail.com

Service d'Ophtalmologie, Hôpital Charles Nicolle, Faculté de Médecine de Tunis, Université de Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

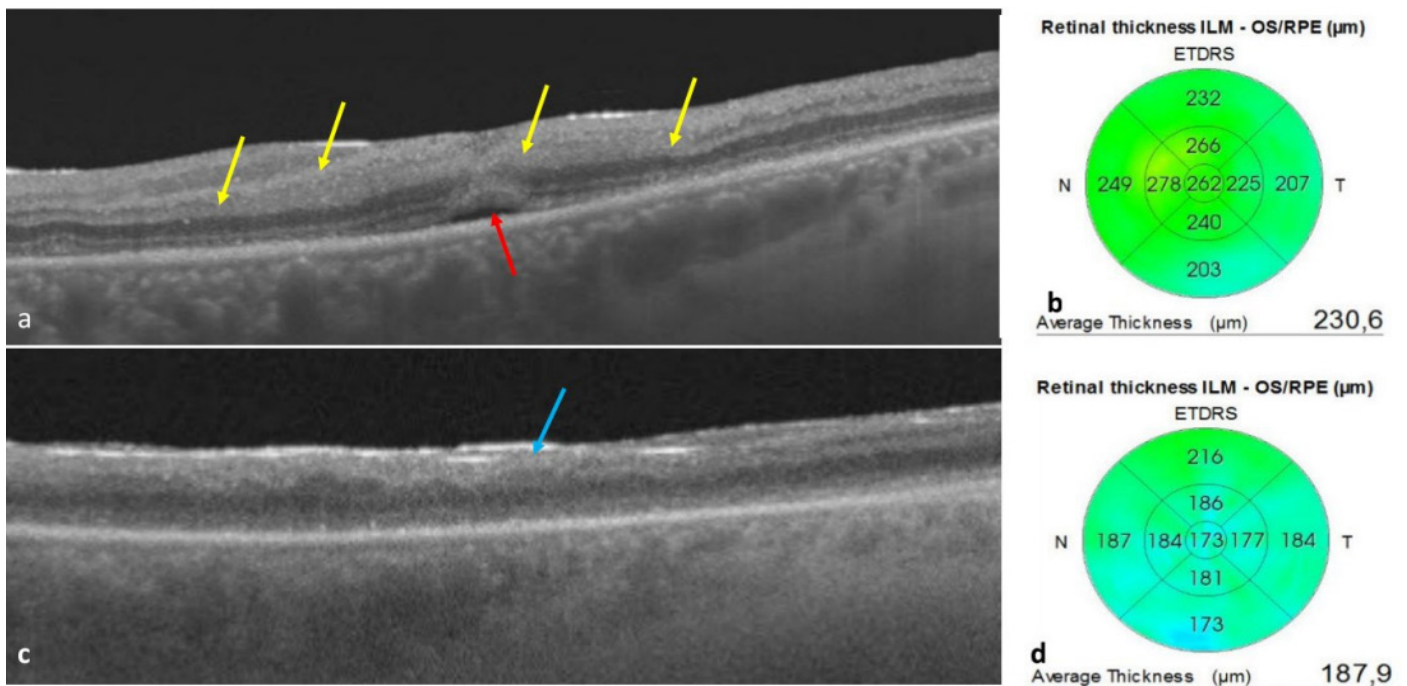


Figure 2. OCT maculaire OG à J1 post-opératoire (a,b) hyperréflexivité des couches internes et intermédiaires (cercle jaune), lame de DSR (flèche rouge), EMC= 262 µ ; OCT maculaire OG à J10 post-opératoire (c,d) amincissement maculaire et désorganisation des couches internes (flèches bleues), EMC=173µ

artérielles rétiniennes, mais inconstamment présents : hyperréflexivité des couches externes, désorganisation architecturale des couches internes, développement d'une membrane limitante moyenne ou encore le décollement de la membrane limitante interne [3]. A la phase tardive, l'hyperréflexivité laisse place à un amincissement irrégulier des couches rétiniennes internes. L'OCT-A est récemment devenue un outil diagnostic majeur dans les pathologies vasculaires de la rétine, en l'occurrence dans les OAR, ou l'on retrouve typiquement une raréfaction au niveau des plexus capillaires superficiel et profond [4]. Chez notre patient, comparément aux données de la littérature, l'hyperréflexivité des couches internes et intermédiaires était notable au premier jour post-opératoire et l'évolution s'est faite vers l'atrophie maculaire diffuse au bout de quelques semaines. L'OCT-A a également objectivé plusieurs zones d'hyposignal au niveau des plexus capillaires superficiel et profond, renforçant

d'avantage le diagnostic d'OACR chez notre patient. Les étiologies des OAR sont largement dominées par les causes thrombo-emboliques, imposant la réalisation d'un bilan cardio-vasculaire en urgence. Nous rapportons dans cette publication un cas original d'OACR, survenu dans le cadre d'une chirurgie vitéo-rétinienne d'un DRR, réalisée sous anesthésie générale, chez un patient sans facteurs de risques vasculaires notables. Les OAR post chirurgie oculaire ont majoritairement été rapportées à la suite de chirurgie de la cataracte par phacoémulsification (PKE), réalisée sous anesthésie loco-régionale (ALR) [5-7]. La plus large série, publiée par Sen et al [5] a recensé 14 patients présentant une OACR dans un délai allant de 1 à 4 jours post-PKE, toutes faites sous ALR. Les principaux mécanismes en cause de l'occlusion étaient imputables à l'ALR selon les auteurs : traumatisme direct de l'artère centrale de la rétine par l'aiguille, effet vasoconstricteur local des drogues anesthésiques,

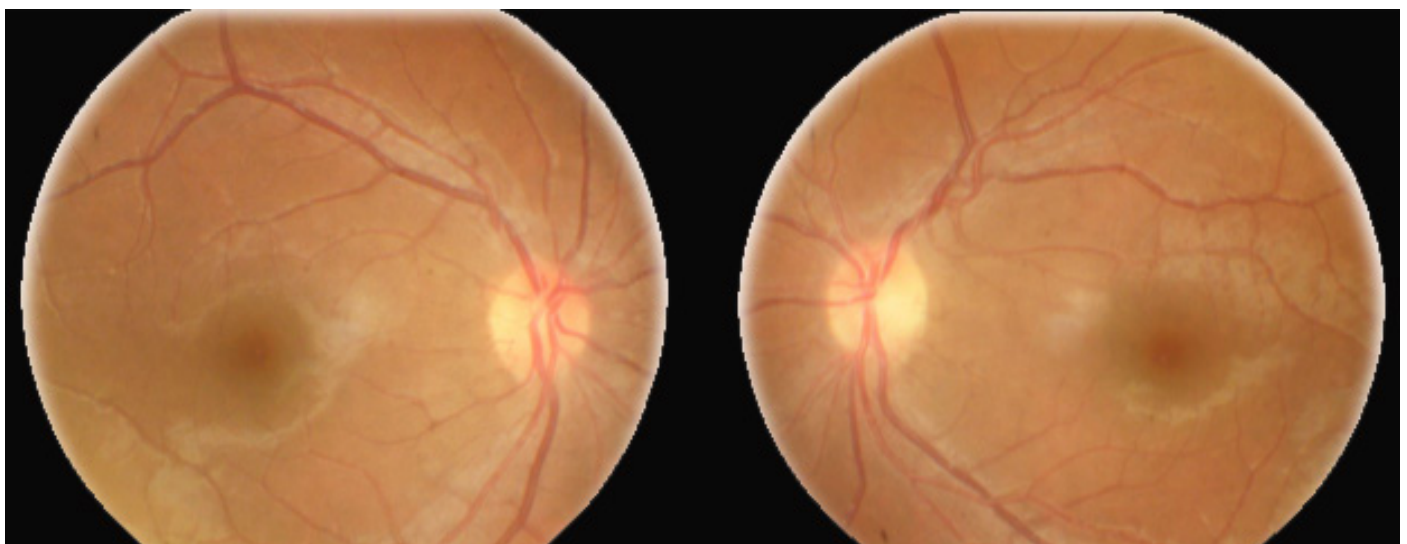


Figure 3. OCT maculaire OG à J1 post-opératoire (a,b) hyperréflexivité des couches internes et intermédiaires (cercle jaune), lame de DSR (flèche rouge), EMC= 262 µ ; OCT maculaire OG à J10 post-opératoire (c,d) amincissement maculaire et désorganisation des couches internes (flèches bleues), EMC=173µ

compression par syndrome de loge intra-orbitaire ou hémorragie rétro-bulbaire. Plus rare, des cas d'OAR post chirurgie vitreo-rétinienne ont également été rapportés [1,6-8]. Chez ces patients, le délai d'apparition variait de 2 à 21 jours, et l'anesthésie était loco-régionale dans la majorité des cas. A notre connaissance, uniquement 4 cas d'OACR survenus à J1 post-opératoire d'une chirurgie du segment postérieur ont été documentés dans la littérature. Il s'agissait d'une vitrectomie dans 2 cas (pour un DRR et un trou maculaire), et une cryo-indentation sclérale pour un DRR dans 2 cas. La procédure était réalisée sous anesthésie rétro-bulbaire chez 3 patients et une anesthésie générale chez une patiente de 22 ans [1,6,9]. Chez cette patiente, un bilan étiologique exhaustif a révélé un trouble de l'hémostase, en l'occurrence une hyperglobulinémie et une résistance à la protéine C activée. Notre publication illustre à notre connaissance, le premier cas d'une OACR post-vitrectomie faite sous AG chez un patient sans facteurs de risques cardio-vasculaires ni troubles de l'hémostase. Le mécanisme de cette occlusion n'est pas clairement identifiable. Nous supposons qu'il s'agirait de la conjonction d'épisode d'hypotension artérielle induite par l'AG, associé à une variation per-opératoire de la pression intra-oculaire. La position face vers le sol pourrait être un facteur aggravant de l'hypoperfusion artérielle rétinienne.

Conclusion

Les occlusions et troubles de perfusion artérielle rétinienne post-opératoire sont rares mais graves. Leur mécanisme physiopathologique est complexe et encore mal élucidé. L'anesthésie locale est souvent incriminée dans ce type d'accident vasculaire. Cependant, une hypotension artérielle lors d'une anesthésie générale peut être également retrouvée. Des troubles de l'hémostase causant une hypercoagulabilité doivent être par ailleurs recherchés. Le pronostic visuel reste mauvais avec scotome central définitif et une AV variable.

Références

1. Russell JF, Scott NL, Haddock LJ, Eaton AM, Flynn HW. Central retinal artery occlusion on postoperative day one after vitreo-retinal surgery. *Am J Ophthalmol Case Rep.* 5 oct 2018;12:93-6.
2. Ahn SJ, Woo SJ, Park KH, Jung C, Hong JH, Han MK. Retinal and choroidal changes and visual outcome in central retinal artery occlusion: an optical coherence tomography study. *Am J Ophthalmol.* avr 2015;159(4):667-76.
3. Chu YK, Hong YT, Byeon SH, Kwon OW. In vivo detection of acute ischemic damages in retinal arterial occlusion with optical coherence tomography: a « prominent middle limiting membrane sign ». *Retina.* 2013;33(10):2110-7.
4. Feucht N, Zapp D, Reznicek L, Lohmann CP, Maier M, Mayer CS. Multimodal imaging in acute retinal ischemia: spectral domain OCT, OCT-angiography and fundus autofluorescence. *Int J Ophthalmol.* 2018;11(9):1521-7.
5. Sen A, Mitra A, Tripathi S, Sharma M, Shenoy P. A cluster of central retinal artery occlusions following cataract surgery. *Indian J Ophthalmol.* mai 2019;67(5):630-3.
6. Confalonieri F, Ladstein GE, Stene-Johansen I, Petrovski G. Iatrogenic central retinal artery occlusion following retrobulbar anesthesia with adrenaline for vitreoretinal surgery: a case report. *J Med Case Rep.* 9 août 2022;16:303.
7. Jung EH, Park KH, Woo SJ. Iatrogenic Central Retinal Artery Occlusion Following Retrobulbar Anesthesia for Intraocular Surgery. *Korean J Ophthalmol.* août 2015;29(4):233-40.
8. Tappeiner C, Garweg JG. Retinal vascular occlusion after vitrectomy with retrobulbar anesthesia-observational case series and survey of literature. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol.* déc 2011;249(12):1831-5.
9. Aslam SA, Ramkissoon YD, Ali N, MacLaren RE. Arterial occlusion after scleral buckling. *Br J Ophthalmol.* avr 2010;94(4):503, 523-4.

FAITS CLINIQUES

Traumatic sub-macular hemorrhage: favorable spontaneous course

Hématome maculaire post-traumatique : une évolution spontanée favorable.

Zgolli Hsouna, Abdelhedi Chiraz*, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila.

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia)
Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

Key-words

submacular, traumatic, course, hemorrhage

Abstract

Purpose. This study aims to evaluate the anatomical and functional outcomes of patients with traumatic submacular hemorrhage (SMH).**Methods.** Retrospective, observational case series of patients with submacular hemorrhage secondary to blunt trauma, presenting between January 2020 and December 2020 to the Department A of the Hedi Raies Institute of Ophthalmology (Tunis, Tunisia).**Results.** Six patients were enrolled in the study. Mean age was 27 years old [17-42 years old]. A male predominance was recorded (4 men). The hematoma was small in 3 patients, and medium otherwise. Retrofoveal location was described in 1 patient. Non-surgical option has been adopted in these cases. All patients were monitored. All hematomas resolved spontaneously after a period of time. A rupture of the underlying Bruch's membrane was observed in all patients. The final best corrected visual acuity ranged between 20/63 and 20/20 (Snellen chart).**Conclusion.** Traumatic subretinal hematoma may occur after closed globe injury. Its management remains a subject of debate. A rapid and spontaneous resolution of the hematoma without substantial damages is rare.

Mots-clés

sous-maculaire, traumatique, évolution, hémorragie

Résumé

Objectif. Cette étude vise à évaluer les résultats anatomiques et fonctionnels chez les patients atteints d'hémorragie sous-maculaire traumatique (SMH).**Méthodes.** Il s'agit d'une série de cas rétrospective et observationnelle de patients présentant une hémorragie sous-maculaire secondaire à un traumatisme contondant, ayant consulté entre janvier 2020 et décembre 2020 au Département A de l'Institut d'Ophthalmologie Hedi Raies (Tunis, Tunisie).**Résultats.** Six patients ont été inclus dans l'étude. L'âge moyen était de 27 ans [17-42 ans]. On a noté une prédominance masculine (4 hommes). Le volume de l'hématome était petit chez 3 patients et de taille moyenne chez les autres, avec une localisation rétrofovéale chez 1 patient. Une approche non chirurgicale a été adoptée dans ces cas. Tous les patients ont été suivis. Tous les hématomes ont disparu spontanément après un certain laps de temps. Une rupture de la membrane de Bruch sous-jacente a été observée chez tous les patients. L'acuité visuelle finale corrigée variait entre 20/63 et 20/20 (tableau de Snellen).**Conclusion.** Les complications infectieuses liées aux corps étrangers intraoculaires végétaux sont des complications sévères qui représentent une menace importante pour la fonction visuelle, avec un pronostic réservé.

Introduction

Traumatic sub-macular hematomas often lead to severe visual acuity loss. Mechanical tissue damage is exacerbated by hemosiderin toxicity and is often irreversible after 24 hours [1]. However, in some cases, particularly when the hemorrhage is not extensive, the evolution may show spontaneous improvement. In this study, we present 6 cases of post-traumatic sub-macular hemorrhage that showed favorable spontaneous resolution without the need for medical or surgical intervention.

Methods

A retrospective, observational case series was conducted to investigate patients presenting with submacular hemorrhage secondary to blunt trauma between January 2020 and December 2020 at the Department A of Hedi Raies Institute of Ophthalmology in Tunis. Prior approval was obtained from all patients, and the study was conducted in accordance with the principles of the Declaration of Helsinki. A minimum follow-up period of six months was required for inclusion in the study. Demographic data, nature of the injury, time between the injury and consultation, and the

findings from a comprehensive ocular examination were recorded. Submacular hemorrhage (SMH) was defined as the presence of blood between the retinal pigment epithelium (RPE) and the neurosensory retina at the macula. Baseline fundus photographs and optical coherence tomography (OCT) scans were taken to analyze the location, extent, and size of the SMH. No patients underwent surgical intervention for their SMH. Instead, close fundus monitoring was adopted for all the patients throughout the follow-up period.

Results

Six patients with a history of blunt trauma were included in this study (Table I). Four males patients, and two women. The average age of the patients was 27 years (ranged from 17 to 42 years). The mean duration of SMH was 13.16 days (ranged from 5 to 30 days). The size of the SMH in 3 patients was small and medium in three patients. Initial visual acuity ranged from light perceptions (retrofoveal hemorrhage) to 10/10 (peripheral hemorrhage). The final visual acuity depended on the extent and the evolution of the hematoma (Table I).

*Corresponding author:

Chiraz Abdelhedi

e-mail: chirazabdelhedi1992@gmail.com

Department A, Hedi Raies Institute of Ophthalmology, Faculty of Medicine of Tunis, University of Tunis El Manar, Tunis, Tunisia

Table I. Demographic and clinical characteristic of our population

Patient	Age and sex	Duration of the hematoma (days)	Size of the hematoma	Initial visual acuity	FTMH	ERM
1	17/M	30	medium	3/10	Temporal juxta foveal	6/10
2	42/M	42	small	8/10	temporal	10/10
3	18/M	22	medium	Light perception	macular	3/10
4	22/F	25	small	10/10	Inferior	10/10
5	30/M	15	medium	3/10	Temporal	7/10
6	27/F	20	small	10/10	Inferior	7/10

All hematomas resolved spontaneously after a period of time. A rupture of the underlying Bruch's membrane was diagnosed in all patients.

Case report

18-year-old man reported left ocular trauma by punch, 3 days before presentation. Left eye examination revealed a well-oriented light perceptions, palpebral ecchymosis and submacular hemorrhage in fundus examination. Color fundus photography and

optical coherence tomography showed foveal and juxta foveal hematoma extended to all retinal layers and choroid (**Figure A1, A2, A3**). Vitrectomy with intravitreal injection of gas with recombinant tissue plasminogen activator (rt-PA) was scheduled nevertheless patient didn't show-up. One month after traumatism, the patient re-consulted. Visual acuity improved to 10/50. Fundus examination showed spontaneous resolved hemorrhage underlying a temporal Bruch's membrane rupture and integrity of the retinal layers (**Figure B1, B2, B3**).

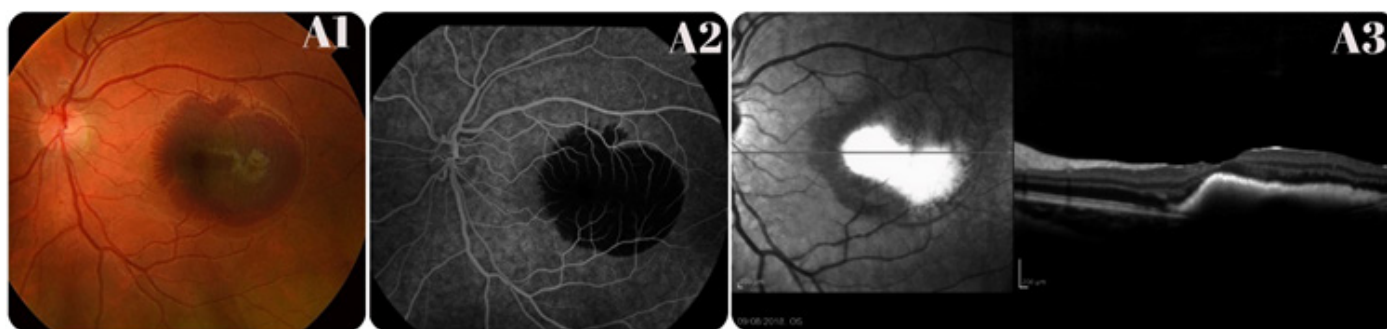


Figure A. Multimodal imaging including color fundus photograph, angiography and OCT of the left eye of a young man with recent post traumatic submacular hematoma. On the color fundus (**A1**), a large and deep hematoma, more than 5 papillary diameter, taking all the macula and temporal region. The angiography (**A2**) showed a central, deep window effect, not hiding the superficial retinal vessels, thus being located in the deep layers of the retina and choroid. The SD OCT (**A3**) confirmed the localization of the hematoma in the deep layers of the retina and choroid. The blood manifests itself as a juxta foveal and temporal hyperreflectivity taking the pigmentary epithelium and the Bruch membrane and lifting the IS/OS line and all the layers above without any posterior shadow cone.

Discussion

Traumatic subretinal hematoma is a clinical manifestation commonly observed in closed globe injuries, and it is often associated with tissue damage caused by multiple mechanisms, including blood coagulation, erythrocyte degeneration with the release of iron and hemosiderin, and subsequent oxidative stress [2]. Additionally, the blood clot acts as a barrier to the nutrition and oxygenation of the photoreceptors, significantly impairing their metabolism [3]. Submacular hemorrhages can be classified based on their size: small SMH measures less than 4 disc diameters, medium-size SMH has a diameter greater than 4 disc diameters but does not extend beyond the temporal

vascular arcade, and massive SMH overspreads the temporal vascular arcade [4]. Over time, the management of traumatic SMH has evolved, and various approaches have been attempted, such as intravitreal or subretinal injection of recombinant tissue plasminogen activator (tPA), intravitreal gas injection, a combination of these methods, or intravitreal injections of anti-vascular endothelial growth factor (VEGF) agents [5]. The visual prognosis primarily depends on the extent, location, and persistence of the hemorrhage. A delay of more than 2 weeks before treatment is associated with a poor final prognosis. Early surgical treatment is therefore recommended, especially for extensive hemorrhages. However, simple fundus monitoring may suffice for young patients with small-size hemorrhages

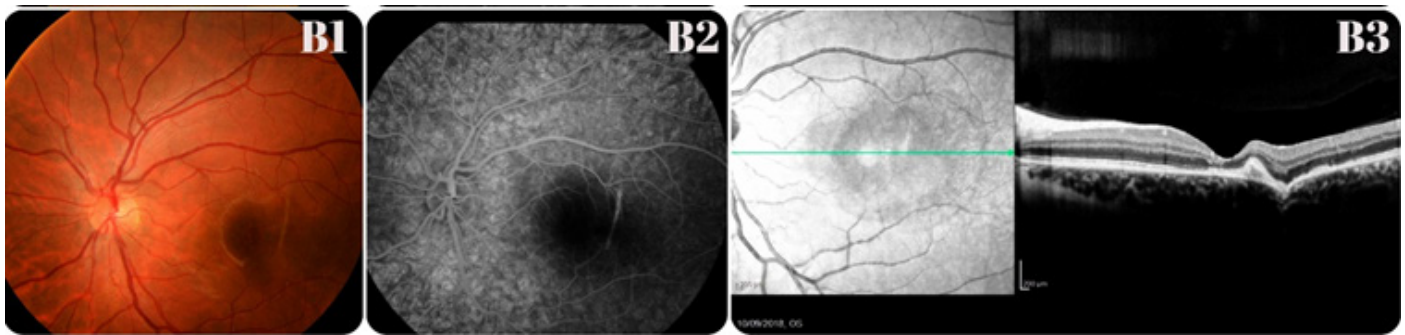


Figure B. Multimodal imaging showing the spontaneous resolution of the hematoma, 1 month after the traumatism. On color fundus (B1), the hematoma has completely reabsorbed leaving a minimal yellowish reflection, the fovea is normal. The rupture of the Bruch membrane appears as a vertical white temporal line. The angiography (B2) showed the same sharp vertical and temporal line and the OCT (B3) confirms the rupture of the Bruch membrane, exactly located 1dp from the fovea. the different layers of the retina are preserved, specially the IS/OS line below the foveal depression

showing favorable spontaneous evolution [6]. In this article, we report 6 cases of subretinal hemorrhages with a favorable spontaneous evolution without treatment. Indeed, it is preferable to abstain and wait for spontaneous resorption, particularly in cases of small hemorrhages, especially in young patients, and to avoid rushing into a surgical procedure, which carries inherent risks. Conversely, extended or persistent hemorrhages should be promptly operated on to prevent serious and irreversible retinal damage.

Disclosure statement

Declaration of conflicting interests. The author(s) declared no potential conflicts of interest with respect to the research, authorship, and/or publication of this article.

Funding. The author(s) received no financial support

References

1- Sobolewska B, Utebey E, Bartz-Schmidt KU and al. Long-term visual outcome and its predictive factors following treatment

of acute submacular hemorrhage with intravitreal injection of tissue plasminogen factor and gas. *J Ocul Pharmacol Ther* 2014;30:567–72.

2- Papanikolaou G, Pantopoulos K. Iron metabolism and toxicity. *Toxicol Appl Pharmacol*. 2005;202:199–211.

3- Hochman MA, Seery CM, Zarbin MA. Pathophysiology and management of subretinal hemorrhage. *Surv Ophthalmol*. 1997;42:195–213.

4- Fine HF, Iranmanesh R, Del Priore LV, Barile GR, Chang LK, Chang S, et al. Surgical outcomes after massive subretinal hemorrhage secondary to age-related macular degeneration. *Retina*. 2010;30:1588–94.

5- G Casini, P Loiudice, M Menchini, F Sartini, S De Cillà, M Figus and al. Traumatic submacular hemorrhage: available treatment options and synthesis of the literature. *Int J Retina Vitreous*. 2019 Dec 11;5:48.

6- Kunavisarut P, Thithuan T, Patikulsil D, Choovuthayakorn J, Watanachai N, Chaikitmongkol V, et al. Submacular hemorrhage: visual outcomes and prognostic factors. *Asia Pac J Ophthalmol*. 2018;7:109–13.

FAITS CLINIQUES

Uveitis revealing coeliac disease : a case report

Uvéite révélant une maladie coéliquaie : à propos d'un cas

Abdaoui Mouna*, Ben Abderrazek Atf, Jabri Ahmed, Khallouli Asma, Maalej Afef, Rannen Riadh

Department of Ophthalmology, Military Hospital of Tunis, Tunis, Tunisia

Keywords

coeliac disease, uveitis, gluten-free diet

Abstract

Introduction. Coeliac disease is an autoimmune disease triggered by gluten consumption. While coeliac disease is associated with extraintestinal manifestations, ocular involvement is rare. .**Observation.** We report the case of a 14-year-old male with a history of diabetes mellitus type 1 who presented with redness and blurred vision in both eyes. The diagnosis of uveitis revealing a coeliac disease was made. Topical steroids and a gluten free diet were initiated, leading to the remission of ocular symptoms.**Conclusion.** Coeliac disease should be considered as a potential cause of uveitis, especially in presence of gastro-intestinal symptoms. Gluten-free diet remains the main treatment.

Mots-clés

maladie coéliquaie, uvéite, régime sans gluten

Résumé

Introduction. La maladie coéliquaie est une pathologie auto-immune déclenchée par la consommation de gluten. Bien que la maladie coéliquaie soit associée à des manifestations extra-intestinales, l'atteinte oculaire est rare. .**Observation.** Nous rapportons le cas d'un jeune homme de 14 ans ayant des antécédents de diabète type 1 qui a présenté une rougeur et un flou visuel bilatéral. Le diagnostic d'uvéite révélant une maladie coéliquaie a été retenu. Une corticothérapie topique et un régime sans gluten ont été instaurés, entraînant la rémission des symptômes oculaires**Conclusion.** La maladie coéliquaie doit être considérée comme une cause potentielle d'uvéite, en particulier en présence de symptômes gastro-intestinaux. Le régime sans gluten reste le principal traitement.

Introduction

Coeliac disease (CD) is an autoimmune disease triggered by the consumption of gluten, in individuals with a genetic susceptibility [1]. CD leads to the atrophy of the villi of the small intestine, which causes the loss of certain essential nutrients, such as vitamins (particularly fat-soluble vitamins), water, and electrolytes. Studies have shown that gliadin, a component of gluten found in wheat, binds to the endomysium, which leads to an inappropriate immune response against antigens present in gluten. The presence of IgA antibodies against the endomysium (IgA-EMA antiendomysial), along with small bowel biopsy, is an important component of the diagnostic process for CD [2]. While CD has been associated with many extraintestinal manifestations, ocular involvement is rare.[3] We describe here a case of coeliac disease revealed by uveitis.

Case report

A fourteen-year-old male with a medical history of type 1 diabetes mellitus presented to our department with bilateral redness and blurred vision. His best-corrected visual acuity (BCVA) was 20/100 in both eyes. Anterior segment examination revealed small keratic precipitates with 1+ cells in the anterior chamber and 2+ flare in the vitreous, in both eyes. Intraocular pressure was 24mm Hg in the right eye and 25mm Hg in the left eye. Fundus examination revealed bilateral papillitis with no signs of chorioiditis or vasculitis (Figure 1). Fundus fluorescein angiography

(FFA) showed early hyperfluorescence of the optic disc in both eyes (Figure 2).

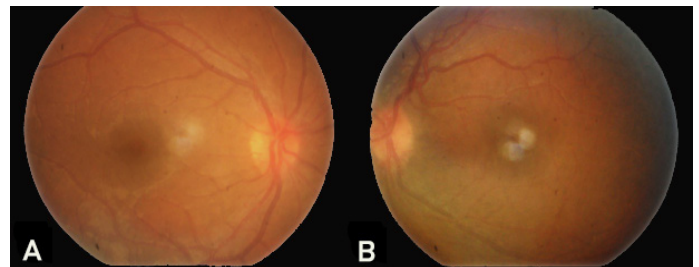


Figure 1. Fundus photography demonstrating papillitis and vitreous haze in right eye (A) and left eye (B).

An etiological assessment was carried out to rule out an infectious or inflammatory origin, but no underlying cause was found. Laboratory tests revealed anemia. On further questioning, the patient described joint pain and recurrent diarrhea. Due to the history of type 1 diabetes mellitus (DM1) and the digestive symptoms, a biopsy of the small intestine was conducted, revealing crypt hyperplasia and mild intraepithelial lymphocytosis. Anti-transglutaminase antibodies and anti-endomysium antibodies were positive. A small bowel biopsy confirmed coeliac disease. Topical steroids and beta-blocker eye drops were initiated, and a gluten-free diet was started. Six weeks later, ophthalmological examination showed no signs of uveitis with a remission of gastrointestinal symptoms (Figure 3).

*Corresponding author :

Mouna Abdaoui

e-mail: drabdaouimouna@gmail.com

Department of Ophthalmology, Military Hospital of Tunis, Tunis, Tunisia

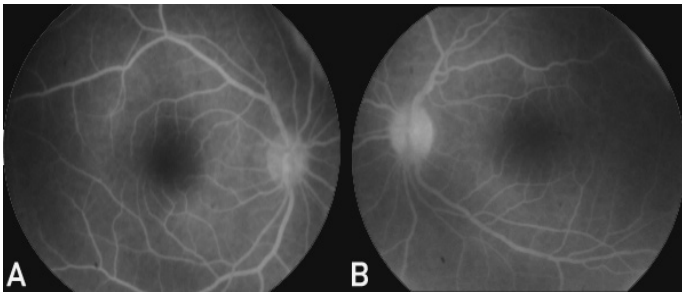


Figure 2. Fluorescein angiography revealing early hyperfluorescence of optic disc in right eye (A) and left eye (B).

Discussion

Coeliac disease (CD) has been associated with a wide range of extraintestinal manifestations, such as dermatological, neurological, and hepatic manifestations, that may occur in up to 50% of patients. Ophthalmologic symptoms are part of the extraintestinal manifestations and can be classified as autoimmune disorders or due to nutrient deficiency [3]. CD-induced malabsorption can cause vitamin deficiencies, specifically in Vitamin A, which can lead to dry eye syndrome, as well as nyctalopia, keratomalacia, and corneal ulceration [4]. If CD is present, cataract formation is also a risk for younger patients as it can lead to the malabsorption of vitamins and trace elements, as well as dehydration induced by diarrhea. Low levels of serum vitamin D and calcium can also increase the risk of cataractogenesis by disturbing lens calcium homeostasis [5]. Additionally, thyroid-associated orbitopathy (TAO), an autoimmune disorder affecting the orbit and periorbital tissues, is known to be associated with Graves' disease or Hashimoto thyroiditis, and can be more common in CD patients because proinflammatory cytokines released from CD can reinforce the immune pathways of autoimmune thyroid diseases [6]. Uveitis can also be linked to CD. Anterior uveitis was found in 5% of patients with celiac disease [7]. A nationwide cohort study from Sweden found that CD patients have a higher risk of uveitis and that the risk remains even five years after diagnosis. Shared immunological factors such as the human leukocyte antigen (HLA) system and production of interferon may explain the association between CD and uveitis, and gluten-free diets may improve its course and outcome [8].

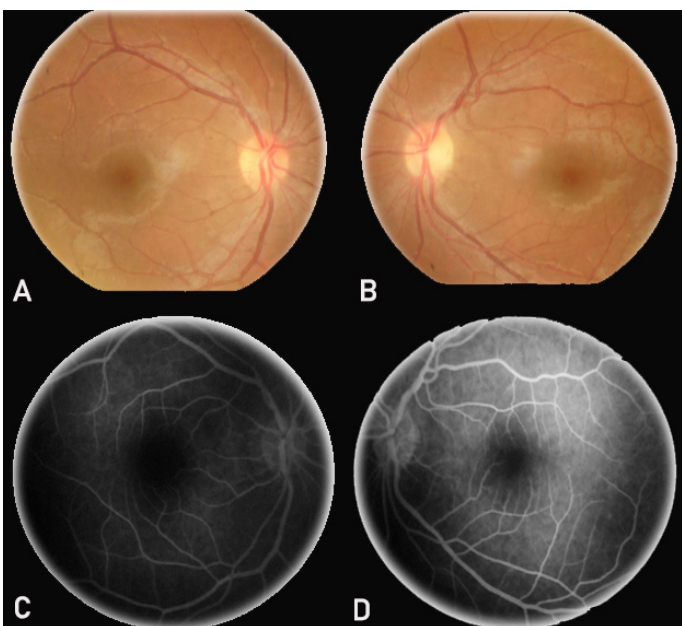


Figure 3. At 6-week follow-up, Colour fundus photos (A) and Fundus fluorescein angiography (B) were completely normal

However, there is no specification of the type of uveitis described in CD in the literature. In our case, CD was suspected in a young patient with DM1 who had neglected gastrointestinal symptoms. CD diagnosis was based on histological signs found on intestinal biopsy. The patient was started on a gluten-free diet. Appropriate diet is believed to lower the self-specific antibodies which may explain the significant improvement of the ocular symptoms in few weeks. Only a few similar cases have been described in the literature. Laghmari and al. reported one case of CD among 20 cases of pediatric uveitis [9]. Hyrailles et al. reported a case of uveitis complicating coeliac disease in a patient who stopped the gluten-free diet [10]. Klack et al. described another case of uveitis revealing CD in a 28-year-old patient with a complete remission of ocular manifestations in few weeks following GFD introduction [11]. Krifa et al. reported a similar case of a 9-year-old type 1 diabetic patient who had uveitis as a first manifestation of coeliac disease, with significant improvement by GFD [12]. More recently, Chiguer et al. described a case of panuveitis occurring in a 14-year-old child with coeliac disease and DM1. The symptoms disappeared after a strict GFD [13].

Conclusion

In conclusion, celiac disease (CD) is a systemic disease and not solely involving the intestinal tract. Although ocular manifestations are rare, Celiac disease (CD) should be considered as a potential cause of uveitis, especially in association to gastrointestinal symptoms. Gluten-free diet (GFD) remains the main treatment and can lead to a significant improvement of ocular symptoms in few weeks.

Disclosure statement

Declaration of conflicting interests. The author(s) declared no potential conflicts of interest with respect to the research, authorship, and/or publication of this article.

Funding. The author(s) received no financial support

References

- [1] Singh P, Arora A, Strand TA et al. Global Prevalence of Celiac Disease: Systematic Review and Meta-analysis. *Clin Gastroenterol Hepatol* 2018;16: 823-836.
- [2] Cianci R, Cammarota G, Lolli S, Gasbarrini GB, Pandolfi F (2008) Abnormal synthesis of IgA in coeliac disease and related disorders. *J Biol Regul Homeost Agents* 22(2):99-104
- [3] Fousekis, F. S., Katsanos, A., Katsanos, K. H., & Christodoulou, D. K. (2020). Ocular manifestations in celiac disease: an overview. *International Ophthalmology*, 40(4), 1049-1054.
- [4] Karatepe Hashas AS, Altunel O, Sevinc E, Duru N, Alabay B, Torun YA. The eyes of children with celiac disease. *J AAPOS*. 2017 Feb;21(1):48-51.
- [5] Brown CJ, Akaichi F (2015) Vitamin D deficiency and posterior subcapsular cataract. *Clin Ophthalmol* 9:1093-
- [6] Mormile R (2016) Celiac disease and Hashimoto's thyroiditis: a shared plot? *Int J Colorectal Dis* 31(4):947
- [7] Martins TGDS, Miranda Sipahi A, Dos Santos FM, Schor P, Anschutz A, Mendes LGA, Silva R. Eye disorders in patients

- [8] Mollazadegan K, Kugelberg M, Tallstedt L, Ludvigsson JF. Increased risk of uveitis in coeliac disease: a nationwide cohort study. *Br J Ophthalmol*. 2012 Jun;96(6):857-61.
- [9] Laghmari M, Karim A, Guedira K, Ibrahimy W, Dahreddine M, Essakalli NH, et al. Uveitis in children: about 20 cases. *J Fr Ophtalmol* 2003;26:609-13.
- [10] Hyrailles V, Desprez D, Beauerère L, de Ferrier F, Larrey D, Ramos J, et al. Uveitis complicating celiac disease and cured by glutenfree diet. *Gastroenterol Clin Biol* 1995;19:543-4.
- [11] Klack K, Pereira RM, de Carvalho JF. Uveitis in celiac disease with an excellent response to gluten-free diet: third case described. *Rheumatol Int*. 2011 Mar;31(3):399-402.
- [12] Krifa F, Knani L, Sakly W, Ghedira I, Essoussi AS, Boukadida J, Ben Hadj Hamida F. Uveitis responding on gluten free diet in a girl with celiac disease and diabetes mellitus type 1. *Gastroenterol Clin Biol*. 2010 Apr-May;34(4-5):319-20.
- [13] Chiguer S, Yousfi M, Mchachi, Benhmidoune, Rachid R, El Belhadji M. Pan-Uveitis in Celiac Disease: A Case Report. *Sch J Med Case Rep*. Feb. 2023; 11(2): 140-143.

FAITS CLINIQUES

Exophtalmie progressive révélant un neuroblastome : à propos d'un cas

Progressive ocular proptosis revealing neuroblastoma: a case report.

Ammari Wafa^{1,3}, Maaloul Sahar^{1,3}, Zaghdoudi Asma^{1,3}, Choura Racem⁴, Mbarek Sameh^{1,3}, Khairallah Molka^{1,3}, Ben Hamouda Hechmi^{2,3}, Mahmoud Anis^{1,3}, Messaoud Riadh^{1,3}¹ Service d'Ophthalmologie, CHU Taher Sfar Mahdia 5100, Tunisie.² Service de Pédiatrie, CHU Taher Sfar Mahdia 5100, Mahdia³ Faculté de Médecine de Monastir, Université de Monastir, Monastir, Tunisie.⁴ Faculté de Médecine de Tunis, Université de Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

Mots-clés Exophtalmie, neuroblastome, métastases, chimiothérapie, pronostic.	Résumé <p>Introduction. Le neuroblastome est une tumeur maligne du système nerveux sympathique. Elle représente la tumeur solide extra-crânienne la plus fréquente du nourrisson. Sa présentation clinique initiale est très variable. Elle dépend du site de la tumeur primitive et du siège des métastases. Nous rapportons un cas d'exophtalmie unilatérale comme présentation orbitaire initiale d'un neuroblastome de la surrenale.</p> <p>Méthodes. Rapport d'un cas clinique et revue de la littérature</p> <p>Résultats. Nous rapportons l'observation d'un nourrisson de 13 mois ayant présenté une exophtalmie unilatérale irréductible rapidement évolutive, dont le bilan étiologique a découvert un neuroblastome surrenalien. Malgré la chimiothérapie néoadjuvante intensive administrée, l'évolution était fatale au bout de trois mois. Une revue de la littérature nous a permis de rechercher les manifestations oculaires et orbitaires initiales du neuroblastome et d'étudier leur implications pronostiques.</p> <p>Conclusion. Une exophtalmie unilatérale rapidement évolutive chez l'enfant doit faire évoquer le diagnostic de métastase orbitaire d'un neuroblastome. La localisation orbitaire initiale est d'emblée associée à un mauvais pronostic.</p>
--	--

Key-words Proptosis, neuroblastoma, metastasis, chemotherapy, prognosis	Abstract <p>Background. Neuroblastoma is a malignant tumor of the sympathetic nervous system. It is the most common extracranial solid tumor in infants. Its initial clinical presentation is very variable, depending on the site of the primary tumor and the site of the metastases. We report a case of unilateral proptosis as the initial orbital presentation of adrenal neuroblastoma.</p> <p>Methods. A clinical case report and literature review.</p> <p>Results. We report the case of a 13-month-old infant who presented with rapidly progressive irreducible unilateral proptosis. The etiological assessment revealed adrenal neuroblastoma. Despite intensive chemotherapy, the evolution was fatal after three months. A review of the literature allowed us to investigate the initial ocular and orbital manifestations of neuroblastoma, and to study their impacts on the prognosis.</p> <p>Conclusion. Rapidly progressive unilateral proptosis in children should suggest the diagnosis of orbital metastasis of neuroblastoma. Initial orbital location is highly associated with a poor prognosis.</p>
---	--

Introduction

Le neuroblastome ou sympatho-blastome est une tumeur maligne de type embryonnaire, appartenant au groupe des tumeurs de la crête neurale [1]. Il constitue le cancer solide extra-crânien le plus fréquent chez l'enfant [2]. Il représente 7 à 8% des cancers infantiles [3]. L'âge moyen de survenue est de 17 mois [1]. Sa présentation clinique est variable, allant d'une tumeur localisée spontanément régressive à une tumeur invasive et rapidement métastatique [2]. Un enfant sur six présente des manifestations oculaires, dont 3% seulement sont isolées [4]. Une présentation initiale orbitaire est assez fréquente, rapportée le plus souvent dans la littérature par des cas isolés et associée à un mauvais pronostic [4]. Nous rapportons le cas d'un nourrisson ayant présenté initialement une exophtalmie unilatérale gauche, dont le bilan étiologique a révélé un neuroblastome surrenalien.

Observation clinique

Il s'agissait d'un nourrisson, de sexe masculin, âgé de 13 mois, sans antécédents pathologiques, ramené par ses parents pour une exophtalmie unilatérale gauche, constatée depuis dix jours et rapidement progressive. Il était issu d'un mariage consanguin de 2^{ème} degré, avec une grossesse menée à terme, et un accouchement par césarienne pour un utérus quadri-cicatriciel. Les parents ont infirmé la présence de cas similaires dans la famille. L'examen ophtalmologique a objectivé une exophtalmie de l'œil gauche, axiale, non réductible, non pulsatile (**Figure 1A**). L'oculomotricité était conservée. L'examen du segment antérieur et du fond d'œil étaient sans anomalies. L'évolution était marquée par une aggravation rapide de l'exophtalmie et l'installation de signes inflammatoires locaux à type de chémosis, rougeur et sécrétions purulentes, de tuméfaction orbitaire latérale

*Auteur correspondant:

Wafa Ammari

E-mail : wafa.ammari@yahoo.fr

Service d'Ophthalmologie, Hôpital universitaire Taher Sfar Mahdia, Faculté de Médecine de Monastir, Tunisie.

gauche au septième jour d'hospitalisation (**Figure 1B**), et d'un abcès cornéen d'origine bactérienne au dixième jour (**Figure 1C**).



Figure 1. (A) Photographie objectivant une exophtalmie unilatérale gauche isolée à J1 d'hospitalisation. (B) Aggravation de l'exophtalmie avec lagophtalmie et apparition d'une rougeur oculaire, d'un chémosis, de sécrétions purulentes et d'une tuméfaction orbitaire latérale gauche à J7 d'hospitalisation. (C) Lagophtalmie, aggravation du chémosis et de la tuméfaction orbitaire latérale gauche avec apparition d'un abcès cornéen fluo positif à J10 d'hospitalisation.

L'examen général a retrouvé un nourrisson éveillé, apyrétique et en bon état général. La palpation de l'abdomen a révélé une masse gauche irrégulière et non sensible à palpation. Une imagerie par résonance magnétique (IRM) orbito-cérébrale (**Figure 2A**)

a montré un processus tissulaire expansif infiltrant la paroi latérale de l'orbite et l'os frontal. La masse était bilatérale, nettement plus importante à gauche mesurant 52x45x35mm, et 30x30x30mm à droite. Elle présentait une extension intraorbitaire bilatérale, refoulant le globe gauche en avant et en bas, avec compression des muscles droits supérieur et latéral, et du nerf optique homolatéral. Le globe oculaire droit était discrètement refoulé sans exophtalmie décelée. Une extension endocrânienne frontale bilatérale avec une infiltration méningée a été mise en évidence. Des coupes tomodynamométriques coronales ont objectivé une ostéolyse perméative de l'os frontal et des deux cadres orbitaires (**Figure 2B**). Le bilan d'extension a repéré deux lésions hépatiques au scanner thoraco-abdomino-pelvien (**Figure 3**), une hyperfixation axiale squelettique à la scintigraphie osseuse et un envahissement médullaire après ponction sternale. Le patient a eu une polychimiothérapie intensive à base d'etoposide et de carboplatine associée à une corticothérapie générale, avec une nette amélioration initiale de l'exophtalmie, mais l'évolution était fatale au bout de 3 mois.

Discussion

Les manifestations oculaires au cours du neuroblastome sont diverses, rapportées selon une revue récente de la littérature dans 17,89% des cas, présentes au moment du diagnostic dans 10,68% et isolées révélatrices de la maladie dans 2,56% des cas [4]. Elles sont dominées par le syndrome de Horner, l'atteinte orbitaire et l'opsoclonie [5]. Par ailleurs, d'autres manifestations oculaires peuvent se voir telles qu'une anisocorie, un strabisme et une paralysie oculomotrice.

L'atteinte métastatique orbitaire est assez fréquente, constatée dans 43% des cas [5]. Elle touche initialement les structures osseuses, s'étend par contiguïté aux tissus mous, et refoule l'ensemble du contenu orbitaire. Le tableau clinique associe une exophtalmie uni- ou bilatérale et des ecchymoses périorbitaires en lunettes observées dans 28 à 33% des cas [3], liées à l'obstruction des vaisseaux palpébraux, donnant un aspect en « racoon eyes », nommé syndrome de Hutchinson [5]. La présence d'hémorragies sous-conjonctivales traduit une pancytopenie

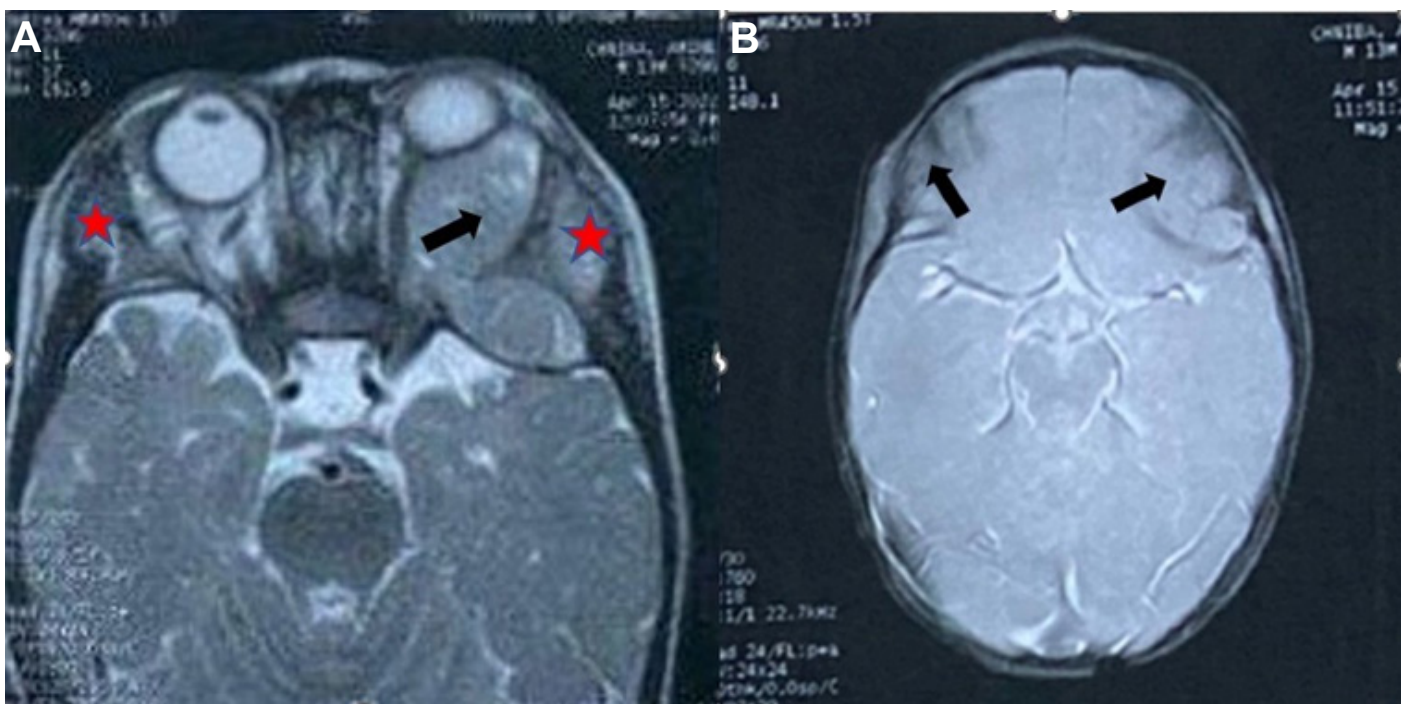


Figure 2 (A) Coupe IRM montrant un processus expansif infiltrant des parois latérales des deux orbites, plus accentué à gauche (Asterisk rouge), avec compression des muscles oculomoteurs droit supérieur et droit latéral (Flèche noire). (B) Coupe IRM montrant l'extension frontale bilatérale du processus expansif (Flèches noires).

due aux métastases médullaires [5,6]. Chez notre patient, l'exophtalmie était isolée et ne s'accompagnait pas d'écchymoses périorbitaires ni d'hémorragie sous-conjonctivale, malgré la présence de métastases médullaires à la ponction sternale. Le diagnostic repose sur l'imagerie qui objective une masse solide hétérogène avec des calcifications dans 30 à 90% des cas. En cas d'atteinte primaire surrénalienne, la masse refoule le rein sous-jacent en bas, croise les vaisseaux médians avoisinants sans les envahir et infiltre les ganglions régionaux [7]. Le dosage du taux des catécholamines urinaires est un indicateur biologique de la maladie. Il est positif chez 91,2 % des patients, avec une sensibilité de 80,7% [8]. L'examen histologique de la biopsie tumorale trouve des amas de petites cellules rondes, relativement indifférenciées et mieux identifiées grâce aux colorations immunohistochimiques, telles que le marquage à l'énolase, à la protéine S-100 et à la chromogranine [7].

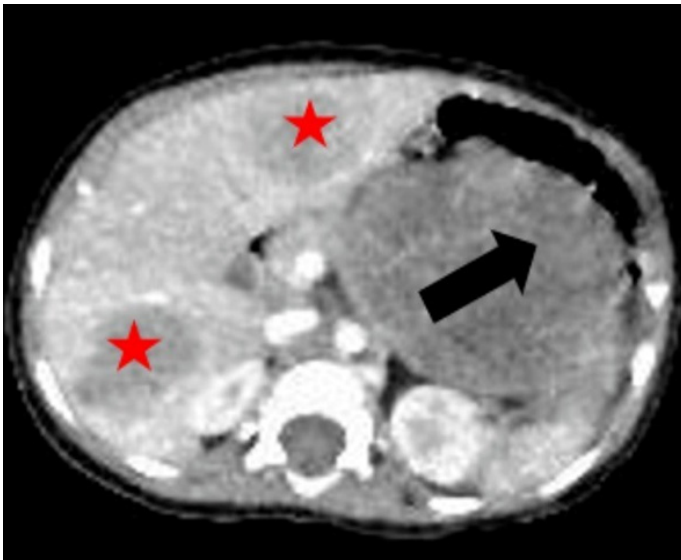


Figure 3. Coupe scanographique montrant une masse tissulaire surrénalienne gauche (flèche noire) et deux lésions hépatiques suspectes (Asterix rouge).

D'abord, le système international de stadification du groupe de risque du neuroblastome (INRGSS), classe le neuroblastome en tumeur localisée (L) et métastatique (M), selon son site primitif et son extension. Ensuite, la tumeur localisée est divisée en deux stades L1 et L2 selon la présence ou l'absence de facteurs de risque définis par l'imagerie. Le stade métastatique est divisé selon l'âge et le site de métastases en stades M et MS. L'atteinte orbito-oculaire est définie par le stade M métastatique de la maladie [6]. D'autant plus, l'association de facteurs pronostiques cliniques et biologiques par le Children's Oncology Group (COG) a permis de stratifier le neuroblastome en une maladie à bas risque, à risque intermédiaire et à haut risque, afin de mieux de codifier le traitement. Les facteurs de mauvais pronostic sont représentés par l'âge de diagnostic supérieur à 12 mois, le stade évolué de la maladie, le grade histologique indifférencié, l'amplification du MYCN, la ploïdie et la présence d'aberration chromosomique segmentaire [4,7,9]. Ainsi, les métastases orbitaires figurent dans la catégorie à haut risque, avec un mauvais pronostic [8]. Harreld et al [3] ont trouvé que seulement les métastases orbitaires sont associées à une diminution significative du taux de survie à 5 ans et de survie globale chez les patients âgés de plus de 18 mois, et que les ecchymoses orbitaires signifient une atteinte osseuse plus étendue. Notre patient avait un mauvais pronostic avec un âge supérieur à 12 mois, un stade avancé de la maladie (stade M) et des métastases orbitaires au moment du diagnostic. Une résection chirurgicale complète est souvent suffisante pour les tumeurs localisées à faible risque, précédée d'une

chimiothérapie d'induction pour les tumeurs à risque intermédiaire [10]. Quant aux tumeurs à haut risque, le protocole thérapeutique agressif associe une chimiothérapie néoadjuvante, une chirurgie des tumeurs accessibles, une chimiothérapie adjuvante et une radiothérapie [9]. Une greffe des cellules souches hématopoïétiques est recommandée. Malgré l'évolution fatale chez notre patient, l'exophtalmie gauche a nettement régressé dès la première cure de chimiothérapie.

Par ailleurs, l'ajout d'un traitement d'entretien à base d'immunothérapie anti-GD2 avec le dinutuximab a amélioré le taux de survie sans événement à 2 ans, des patients à haut risque, à 66% [7,10]. Actuellement, l'utilisation de la méta-iodo-benzyl-guanidine (MIBG) marquée à l'iode 131 comme thérapie primaire et adjuvante, chez les patients à haut risque, a donné des taux de réponse prometteurs [7]. Certes, les progrès et la multitude des nouveaux protocoles thérapeutiques représentés par la chimiothérapie, la chirurgie, la greffe de cellules souches et l'immunothérapie, a permis d'améliorer le taux de survie des enfants atteints de neuroblastome. Cependant, le pronostic reste sombre devant un stade métastatique au moment du diagnostic, en particulier des métastases orbitaires [10].

Conclusion

Une métastase orbitaire d'un neuroblastome doit être évoquée devant toute exophtalmie uni- ou bilatérale rapidement évolutive, accompagnée ou non d'écchymoses périorbitaires en lunettes, chez un enfant âgé de moins de 5 ans, en dehors d'un traumatisme. Malgré les progrès thérapeutiques, le pronostic reste réservé.

Déclaration des conflits d'intérêts

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts en rapport avec cet article.

Consentement éclairé des parents

Les parents du nourrisson ont donné leur consentement à l'usage des données du dossier médical ainsi que les photos de leur fils pour la publication scientifique.

Références

1. Matthay KK, Maris JM, Schleiermacher G, Nakagawara A, Mackall CL, Diller L, et al. Neuroblastoma. *Nat Rev Dis Primers* 2016;2:16075.
2. Maris JM. Recent advances in neuroblastoma. *N Engl J Med* 2010;362:2202-11.
3. Harreld J.H, Bratton E.M, Federico S.M, et al. Orbital metastasis is associated with decreased survival in stage m neuroblastoma. *Pediatr Blood Cancer* 2016;63:627-33.
4. Kuchalska K, Derwich K, Gotz-Więckowska A. Ophthalmologic Manifestations of Neuroblastoma: A Systemic Review. *J Pediatr Hematol Oncol* 2022 Sep 13. doi: 10.1097/MPH.0000000000002543. Online ahead of print. PMID: 36161977.
5. Graef S, Irwin MS, Wan MJ. Incidence and prognostic role of the ocular manifestations of neuroblastoma in children. *Am J Ophthalmol* 2020;213:145-52.
6. Nadella KS, Tripathy D. Hutchison's syndrome: suspecting metastatic neuroblastoma. *BMJ Case Rep* 2021;14:e240859. doi: 10.1136/bcr-2020-240859.

7. Swift CC, Eklund MJ, Kraveka JM, Alazraki AL. Updates in Diagnosis, Management and Treatment of Neuroblastoma. *Radiographics* 2018;38(2):566-80.
8. Strenger V, Kerbl R, Dornbusch HJ, Ladenstein R, Ambros PF, Ambros IM, et al. Diagnostic and prognostic impact of urinary catecholamines in neuroblastoma patients. *Pediatr Blood and Cancer* 2007;48(5):504-9.
9. Irwin MS, Naranjo A, Zhang FF, Cohn SL, London WB, Gastier-Foster JM, et al. Revised Neuroblastoma Risk Classification System: A Report Children's Oncology Group. *J Clin Oncol* 2021;39(29):3229-41.
10. Croteau N, Nuchtern J, Laquaglia MP. Management of Neuroblastoma in Pediatric Patients. *Surg Oncol Clin of N Am* 2021;30(2):291-304.

FAITS CLINIQUES

Les décollements postérieurs du vitré hémorragiques : Prise en charge et revue de la littérature

Posterior vitreous hemorrhage: Management and literature review.

Abdelhedi Chiraz*, Zgolli Hsouna, Fekih Olfa, Mekni Manel, Malek Ines, Zghal Imene, Nacef Leila

Service A, Institut Hédi Raies d'Ophtalmologie (Tunis, Tunisie)
Faculté de Médecine de Tunis, Université Tunis El Manar, Tunis, Tunisie

Mots-clefs

décollement postérieur du vitré ; hémorragie vitréenne ; déchirure ; vitrectomie.

Résumé

Introduction Le décollement postérieur du vitré (DPV) est une séparation entre le cortex vitréen et la membrane limitante interne. Cette séparation se fait de façon variable selon sa pathogénie et ses circonstances de survenue. Le DPV est généralement asymptomatique ; lorsqu'il est symptomatique, il faut rechercher une déchirure rétinienne.

Observations.

Cas N°1. Jeune adulte âgé de 34ans, qui se présente aux urgences d'ophtalmologie de l'institut Hédi Raies de Tunis (Service A) pour une baisse brutale de vision de l'œil en rapport avec une hémorragie vitréenne (HV) de grande abondance isolée. L'échographie oculaire en mode B a permis de confirmer le diagnostic de DPV incomplet hémorragique. Devant la non résorption de l'HV, une vitrectomie postérieure 23G par la pars plana a été réalisée au bout de 10 jours, une avulsion vasculaire a été mise en évidence en per-opératoire.

Cas N°2. Patient âgé de 57 ans, ayant consulté nos urgences pour une baisse de vision brutale de l'œil droit en rapport à un DPV hémorragique. Dans de la cadre de la surveillance clinique et échographique durant la première semaine, un décollement de rétine de l'œil droit a été diagnostiqué au 10^{ème} jour. La prise en charge était d'opérer le malade sans délais.

Conclusions. Le DPV est une cause fréquente d'hémorragie du vitré. Plusieurs facteurs de risque sont en cause. Tout patient consultant aux urgences pour un DPV hémorragique, nécessite un examen attentif afin d'éliminer une déchirure rétinienne ainsi qu'une surveillance rapprochée.

Keywords

posterior vitreous detachment; vitreous hemorrhage; retinal tear; vitrectomy.

Abstract

Introduction. Posterior vitreous detachment (PVD) is a separation between the vitreous cortex and the internal limiting membrane. This separation occurs variably depending on its pathogenesis and circumstances of occurrence. PVD is generally asymptomatic, but when symptomatic, a retinal tear should be investigated.

Observations.

Case 1. A 34-year-old young adult presented to the emergency department at Hédi Raies Institute of Ophthalmology in Tunis (Department A) with sudden vision loss in one eye due to a significant isolated vitreous hemorrhage (VH). B-mode ocular ultrasound confirmed the diagnosis of incomplete hemorrhagic PVD. As the VH did not resolve, a 23G posterior vitrectomy through the pars plana was performed after 10 days, revealing a vascular avulsion during the surgery.

Case 2. A 57-year-old patient presented to our emergency department with sudden vision loss in the right eye related to an hemorrhagic PVD. During the first week of clinical and ultrasound monitoring, retinal detachment in the right eye was diagnosed on the 10th day. The patient underwent prompt surgical intervention.

Conclusion. PVD is a common cause of vitreous hemorrhage, and several risk factors are involved. Any patient presenting to the emergency department with hemorrhagic PVD requires a careful examination to rule out retinal tears and should be closely monitored.

Introduction

Le décollement postérieur du vitré (DPV) est une séparation entre le cortex vitréen et la limitante interne de la rétine. Cette séparation se fait de façon variable selon sa pathogénie et ses circonstances de survenue.

Le DPV est généralement asymptomatique; lorsqu'il est symptomatique, il faut rechercher une déchirure rétinienne. Une hémorragie minime accompagne 13 à 19 % des DPV, et 60 % des DPV avec déchirure sont associés à un saignement [1]. Les déchirures rétiniennes compliquées ou non de décollement de rétine, représentent donc la situation redoutable devant un DPV hémorragique, qu'il faut rechercher avec acharnement.

Observations

Cas N°1

Il s'agit d'un jeune adulte âgé de 34 ans, sans antécédents pathologiques qui se présente aux urgences de l'institut Hédi Raies d'ophtalmologie de Tunis (Service A) pour une baisse brutale de la vision avec sensation de pluie de suie et de voile rouge devant l'œil droit. La reprise de l'interrogatoire objective la notion d'un syndrome vitréen comprenant des myodésopsies et des photopsies 7 jours précédant l'épisode. L'examen ophtalmologique a objectivé au fond de l'œil (FO) une hémorragie vitréenne (HV) de grande abondance au niveau de l'œil droit. L'échographie oculaire

*Auteur correspondant

Chiraz Abdelhedi

Email: chirazabdelhedi1992@gmail.com

Service A : institut Hédi Raies d'ophtalmologie, Tunis, Tunisie

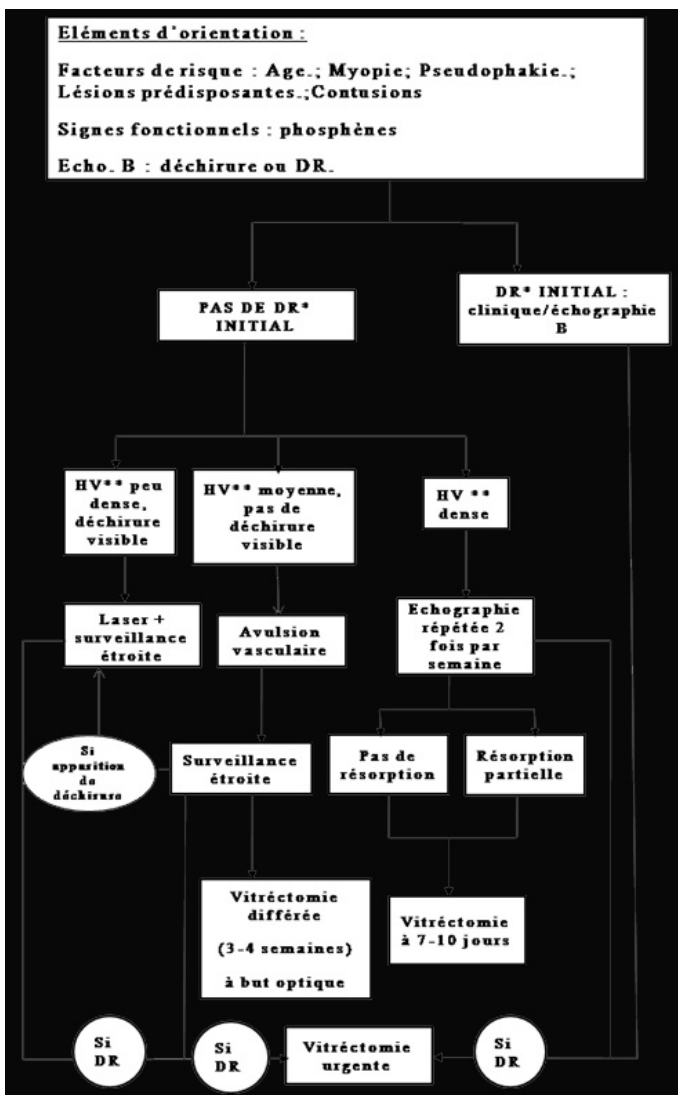


Figure 1. Protocole de prise en charge du décollement postérieur du vitré hémorragique.

en mode B a montré en plus des échos vitréens diffus correspondants à l'HV, une fine ligne hyperéchogène qui disparaît au faible gain et incomplètement détachée de la rétine qui correspond quant à elle à la hyaloïde postérieure épaissie. Le diagnostic de DPV incomplet hémorragique a été retenu. La prise en charge thérapeutique était une surveillance rapprochée clinique et échographique selon le protocole en vigueur au service (**Figure 1**). Ainsi, devant la non résorption de l'HV avec un examen du FO possible seulement en supérieur, une vitrectomie postérieure 23G par la pars plana a été réalisée au bout de 10 jours. Après éclaircissement des milieux en fin de vitrectomie, une avulsion vasculaire a été mise en évidence Protocole de prise en charge du décollement postérieur du vitré hémorragique (**Figure 2a, b**). En fin d'intervention, une endocoagulation du vaisseau avulsé a été réalisée (**Figure 2c**) afin de prévenir le resaignement intra cavitaire.

Cas N°2

Il s'agit d'un patient âgé de 57 ans, sans antécédents pathologiques généraux ou ophtalmologiques, qui a consulté aux urgences pour une baisse de vision brutale de l'œil droit. L'examen ophtalmologique associé à l'échographie en mode B (**Figure 3a**) nous ont permis de retenir le diagnostic d'une HV de grande abondance en rapport avec un DPV hémorragique. Dans le cadre de la surveillance clinique et échographique, un décollement de rétine (DR) de l'œil droit a été diagnostiqué au 10ème jour (**Figure 3b**). La conduite à tenir était d'opérer le malade sans délais.

Une vitrectomie par la pars plana a été effectuée. L'exploration per-opératoire a mis en évidence une déchirure à clapet postérieure en temporal supérieur avec vaisseau en pont (**Figures 4a**) compliquée d'un DR. Nous avons procédé à une endo-coagulation du vaisseau en pont suivie d'une rétinectomie du clapet au vitréotome (**Figure 4b**). Nous avons terminé la vitrectomie par une rétinopexie de la déchirure à l'endolaser après réapplication de la rétine sous air et enfin un tamponnement par huile de silicone (**Figure 4c**).

Discussion

Cette étude présente deux cas de patients atteints de décollement postérieur du vitré (DPV) avec une complication hémorragique, nous permettant ainsi de discuter de notre approche thérapeutique dans de tels cas. L'hémorragie vitréenne est une complication redoutable du DPV, observée chez 6 à 18 % des patients présentant des symptômes de DPV. Parmi les facteurs de risque identifiés, l'âge, une forte myopie, une rétinopathie proliférante, des antécédents de traumatisme oculaire, ainsi que la chirurgie de la cataracte (aphakie et pseudophaquie) sont les

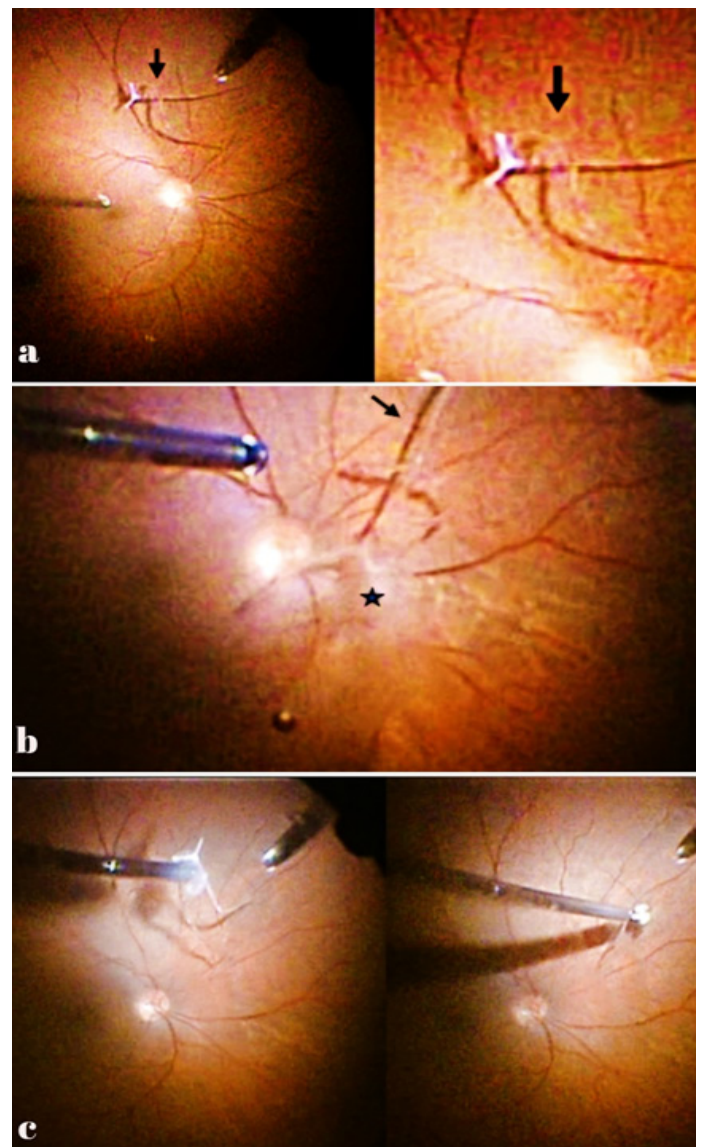


Figure 2. DPV compliquant une avulsion vasculaire rétinienne. (a) Fide vitrectomie objective l'avulsion d'une artère rétinienne (flèche noire) avec l'ombre du vaisseau avulsé en arrière. (b) photographie per opératoire objective l'avulsion vasculaire (flèche noire) ainsi que l'attache vitréenne postérieure (Asterix) exerçant une traction sur le vaisseau. (c) Endocoagulation d'un vaisseau rétinien avulsé responsable d'un DPV hémorragique.

principaux facteurs prédisposants [1-4]. L'hémorragie vitréenne survenant lors d'un DPV peut être attribuée soit à une déchirure rétinienne périphérique due à une traction vitéo-rétinienne, soit à une avulsion vasculaire, et plus rarement à une traction vasculaire papillaire. L'adhérence du vitré aux parois vasculaires peut expliquer l'apparition d'hémorragies lors de la formation de la déchirure. Notre observation confirme l'association fréquente du DPV avec une hémorragie vitréenne, souvent témoignant de la présence sous-jacente d'une déchirure rétinienne, qui est un facteur précurseur majeur du décollement de rétine rhégmato-gène. Il est essentiel d'être vigilant concernant cette association, car un DPV avec hémorragie accroît considérablement le risque de déchirure rétinienne, qui peut atteindre jusqu'à 51 voire 95 % [5-7]. Dans le cadre de la prise en charge initiale de patients présentant une hémorragie vitréenne dense, le repos et une hydratation adéquate sont des mesures courantes, avec une surveillance clinique et échographique étroite de la résorption de l'hémorragie. L'évaluation de la rétine supérieure peut révéler la présence d'une déchirure ou d'une traction, nécessitant une vigilance particulière. Quant à l'indication et au moment idéal pour une vitrectomie, ces aspects demeurent sujets à discussion. Toutefois, compte tenu du risque potentiel de décollement de rétine et de prolifération vitréo-rétinienne (PVR), il est impératif de ne pas retarder l'intervention chirurgicale et de la réaliser le plus rapidement possible en cas de décollement de rétine associé. Cette approche a été confirmée

dans nos deux cas, où une vitrectomie précoce a été réalisée en raison de l'HV persistante et de la difficulté d'accès à la périphérie rétinienne, étant donné le risque élevé de déchirure rétinienne en cas de DPV hémorragique. En conclusion, cette étude souligne l'importance de la reconnaissance et de la gestion rapide des cas de DPV hémorragique, étant donné le risque accru de déchirure rétinienne et de décollement de rétine. Une approche thérapeutique proactive avec une vitrectomie précoce peut être cruciale pour améliorer les résultats chez ces patients. Cependant, des études supplémentaires seront nécessaires pour mieux définir les indications et le moment optimal de l'intervention chirurgicale pour cette condition clinique.

Conclusion

Le décollement postérieur du vitré (DPV) constitue une cause fréquente d'hémorragie vitréenne. Plusieurs facteurs de risque sont associés à cette condition. Ainsi, tout patient présentant une hémorragie vitréenne due à un DPV, nécessite une évaluation minutieuse de la rétine périphérique, ainsi qu'une surveillance étroite pour détecter précocement la complication la plus fréquente, à savoir la déchirure rétinienne. Un traitement approprié doit être entrepris avant que cela ne progresse vers un décollement de rétine. Cette approche proactive est essentielle pour prévenir les

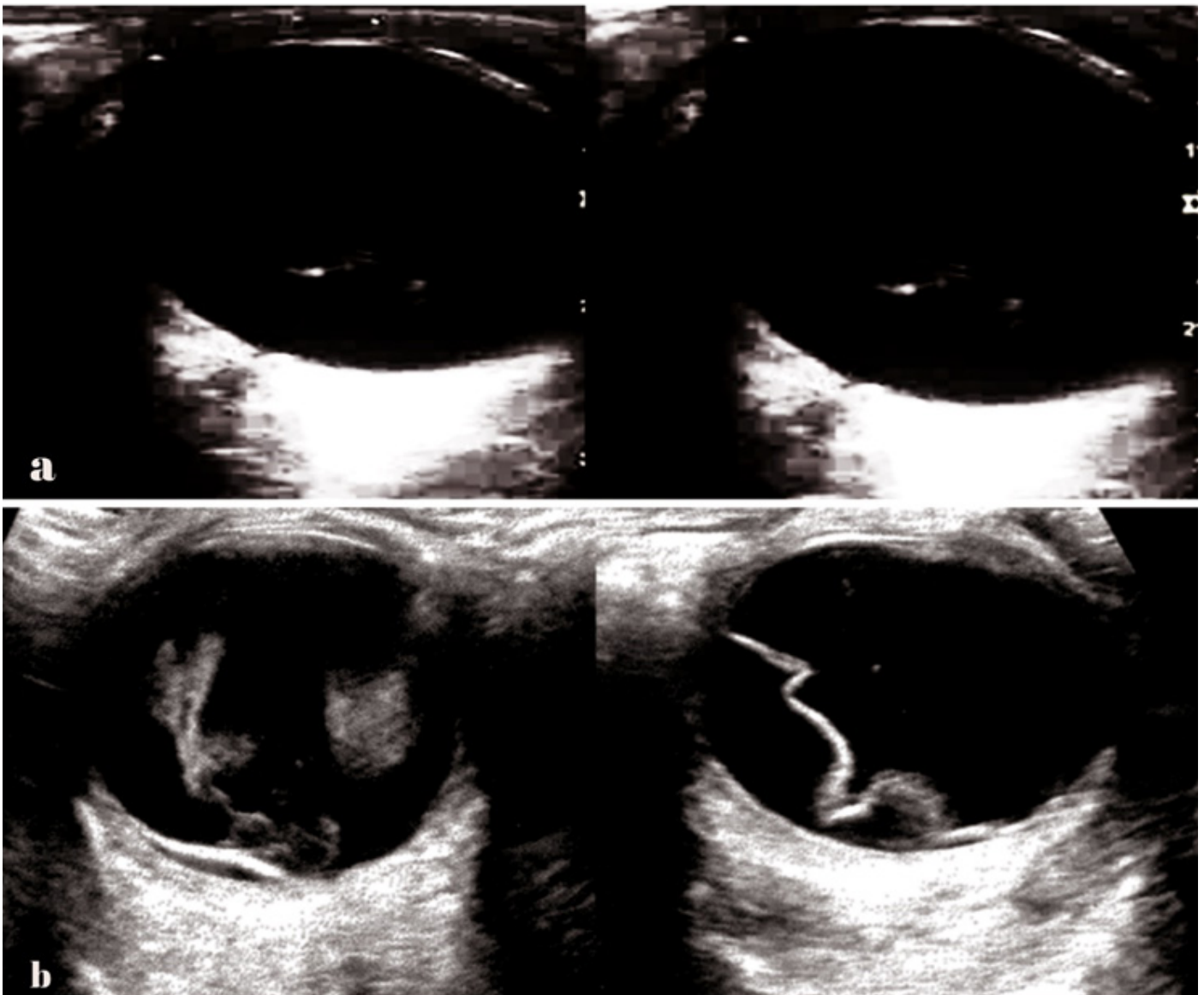


Figure 3. Échographie oculaire en mode B chez un patient présentant une hémorragie vitréenne obturante (a) une hémorragie vitréenne sans déchirure (faible gain) (b) objectivant une hémorragie vitréenne associée à un décollement de rétine supérieur.

complications graves et améliorer les résultats cliniques chez ces patients. Une prise en charge précoce et attentive est donc primordiale pour optimiser les chances de succès thérapeutique.

Déclaration des conflits d'intérêts

Aucun conflit d'intérêt n'est déclaré par les auteurs.

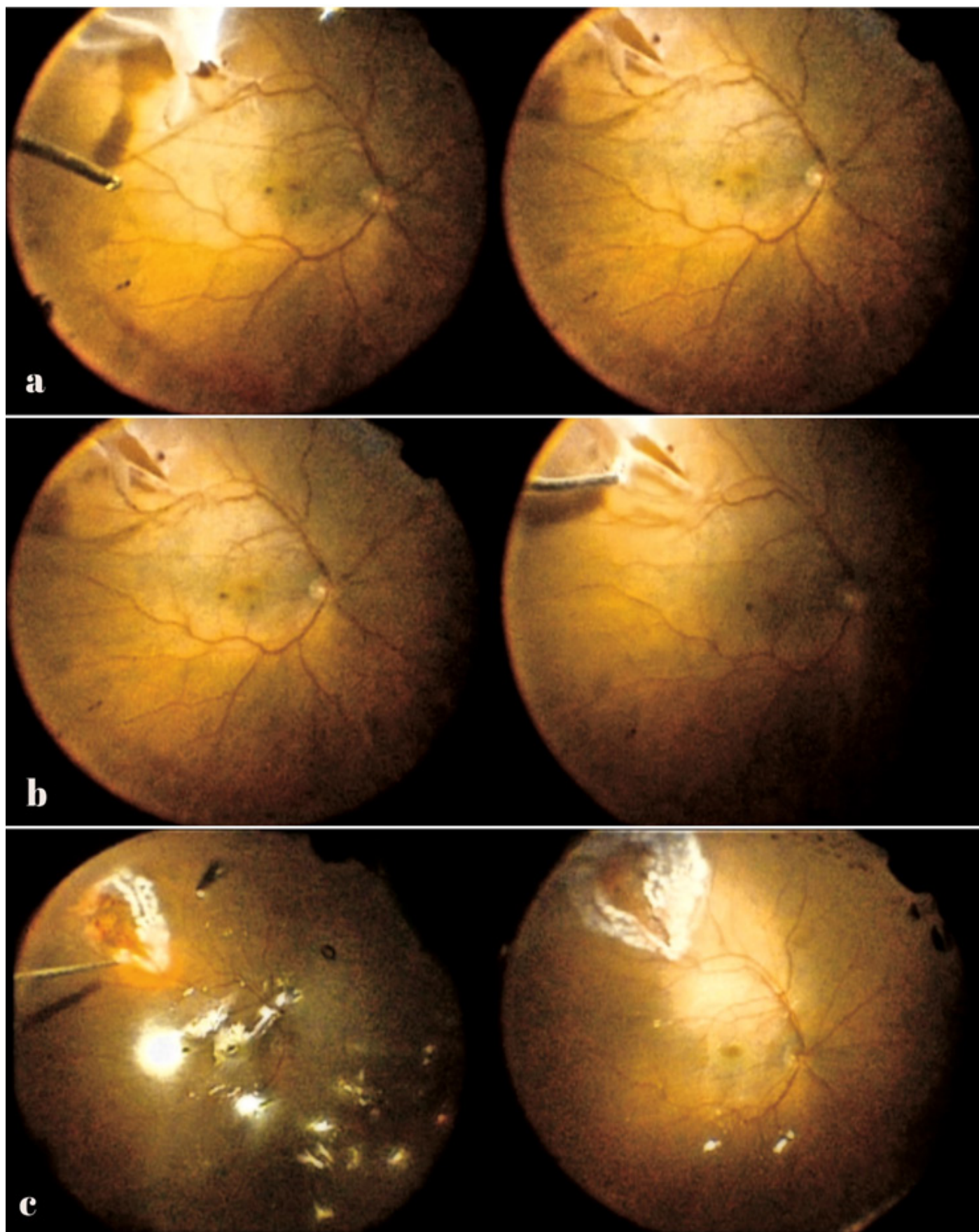


Figure 4. DPV par déchirure avec vaisseau rétinien en pont (a) DPV hémorragique secondaire à une déchirure rétinienne avec vaisseau en pont compliquée de décollement de rétine rhéomatogène (b) Endodiathermie du vaisseau en pont en regard d'une déchirure rétinienne (c) Rétinopexie à l'endolaser d'une déchirure rétinienne.

Références

1. Tanner V, Harle D, Tan J, Foote B, Williamson TH, Chignell AH. Acute posterior vitreous detachment: the predictive value of vitreous pigment and symptomatology. *Br J Ophthalmol*. 2000 Nov; 84(11):1264-8.
2. Johnson MW. Posterior vitreous detachment: evolution and complications of its early stages. *Am J Ophthalmol*. 2010 Mar;149(3):371-82.
3. Sebag J. Floaters and the quality of life. *Am J Ophthalmol* 2011;152:3-4.
4. Byer NE. Natural history of posterior vitreous detachment with early management as the premier line of defence against retinal detachment *Ophthalmology* 1994;101:1503-13.
5. Sharma S, Walker R, Brown GC, Cruess AF. The importance of qualitative vitreous examination in patients with acute posterior vitreous detachment. *Arch Ophthalmol* 1999;117:343-6.
6. Coffee RE, Westfall AC, Davis GH, Mieler WF, Holz ER. Symptomatic posterior vitreous detachment and the incidence of delayed retinal breaks: cases series and meta-analysis. *Am J Ophthalmol*. 2007 Sep;144(3):409-413.
7. Melamud A, Pham H, Stoumbos Z. Early Vitrectomy for Spontaneous, Fundus-Obscuring Vitreous Hemorrhage. *American Journal of Ophthalmology* (2015).
8. Sarrafizadeh R, Hassan TS, Ruby AJ, Williams GA, Garretson BR, Capone A Jr, Trese MT, Margherio RR (2001) Incidence of retinal detachment and visual outcome in eyes presenting with posterior vitreous separation and dense fundus-obscuring vitreous haemorrhage. *Ophthalmology* 108:2273-2278.
9. Dhingra N, Pearce I, Wong D. Early vitrectomy for fundus-obscuring dense vitreous haemorrhage from presumptive retinal tears. *Graefes Arch Clin Exp Ophthalmol*. 2007 Feb;245(2):301-4.
10. Gishti O, van den Nieuwenhof R, Verhoeckx J, van Overda K. Symptoms related to posterior vitreous detachment and the risk of developing retinal tears: a systematic review. *Acta Ophthalmol*. 2019 Jan 11.

REVUE GENERALE

Le syndrome du compartiment orbitaire

Orbital compartment syndrome

Abdelhedi Chiraz*, Kammoun Sonda, Gargouri Salma, Trigui Amira.

Service d'Ophthalmologie, CHU Habib Bourguiba, Sfax, Tunisie
Faculté de Médecine de Sfax, Université de Sfax, Sfax, Tunisie

1. Introduction

Le syndrome du compartiment orbitaire (SCO) est l'une des rares urgences chirurgicales ophtalmologiques que tous les ophtalmologistes et les urgentistes devraient connaître [1]. En effet, l'orbite est un espace clos avec une capacité limitée à se distendre. L'augmentation aiguë du volume dans des espaces orbitaires confinés entraîne une tension orbitaire accrue [2]. La physiopathologie du SCO est similaire à celle des autres syndromes du compartiment (par exemple, syndrome des loges au niveau des membres, glaucome aigu) entraînant une morbidité significative [3].

Dans le SCO, une ischémie du nerf optique et de la rétine peut se développer rapidement, entraînant une perte de vision irréversible. Des études suggèrent que 60 à 100 minutes de pression orbitaire élevée peuvent entraîner des séquelles visuelles irréversibles [4].

Les étiologies les plus fréquentes du SCO comprennent l'hémorragie orbitaire aiguë, la chirurgie orbitaire, les injections périoculaires ainsi que les troubles de la coagulation. Il existe d'autres étiologies moins fréquentes telles que la cellulite orbitaire fulminante ou l'abcès intraorbitaire, l'emphysème orbitaire, l'inflammation, les tumeurs, les corps étrangers, la réanimation massive après une brûlure ou l'œdème positionnel peuvent entraîner une augmentation aiguë de la pression orbitaire [1].

Bien qu'il existe de nombreux rapports de cas de SCO d'étiologies diverses, les caractéristiques diagnostiques et la prise en charge de ce syndrome restent encore controversés. L'objectif de cette revue est de décrire la présentation clinique, les résultats radiologiques et la prise en charge du SCO.

2. Pathogénèse

2.1. Anatomie de l'orbite

L'orbite est une cavité osseuse de 30 ml de volume, qui contient le globe oculaire, la graisse périorbitaire, les muscles extraoculaires, les vaisseaux, les nerfs, la glande lacrymale et le sac lacrymal [5]. C'est un espace confiné en forme de cône, limité sur tous les côtés par des parois osseuses, à l'exception de sa base antérieure [6]. Les tendons canthaux médiaux et latéraux attachent les paupières à la marge orbitaire et limitent le mouvement vers l'avant du globe oculaire. L'orbite peut être divisée en plusieurs espaces anatomiques, notamment l'espace sous-périosté, l'espace extraconique et l'espace intraconique (Figure 1). Différentes pathologies peuvent impliquer généralement des espaces anatomiques spécifiques. Par exemple, la cellulite orbitaire peut être associée à un abcès, occupant généralement l'espace sous-périosté [7].

En avant, l'orbite est délimitée par le septum orbitaire et les tarses des paupières supérieure et inférieure. La pression intraorbitaire moyenne chez l'adulte est de 3 à 6 mmHg. On reconnaît que l'orbite a une compliance limitée en raison de l'élasticité réduite du septum et des plaques tarsiennes, au-delà de laquelle une augmentation de la pression intraorbitaire se produit [6].

2.2. Mécanisme du syndrome du compartiment orbitaire

Le mécanisme exact de la perte visuelle secondaire au SCO n'a pas été complètement établi. Hargarden et al. [8] ont simulé le SCO chez des primates en plaçant un cathéter dans l'espace

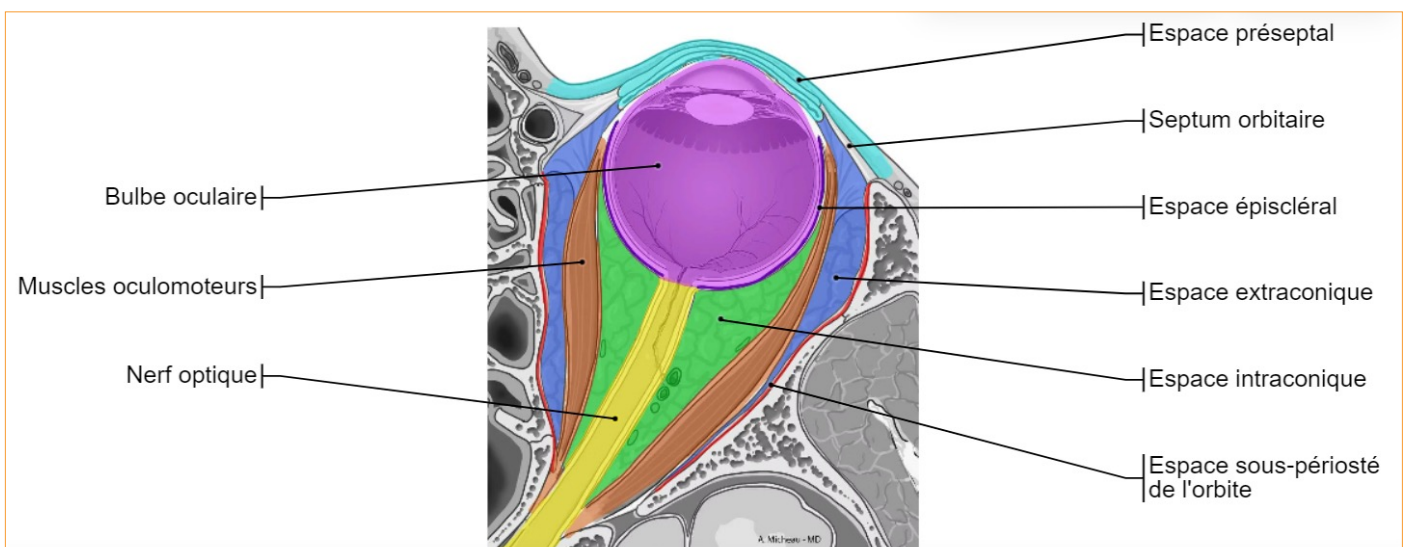


Figure 1. Les espaces orbitaires.

*Auteur correspondant:

Chiraz Abdelhedi

e-mail : chirazabdelhedi1992@gmail.com

Service d'Ophthalmologie, CHU Habib Bourguiba, Faculté de Médecine de Sfax, Université de Sfax, Sfax, Tunisie

rétrobulbaire et en le gonflant avec du sérum physiologique pendant au moins 180 minutes. L'analyse histopathologique a montré que la perte de vision était secondaire à une neuropathie optique ischémique.

2.3. Facteurs de risque

Les principaux facteurs de risque comprennent la chirurgie orbitaire ou périorbitaire, les traumatismes de la face, l'anticoagulation, les hémopathies et les troubles de l'hémostase. Les facteurs de risque moins courants comprennent la cellulite et/ou l'abcès orbitaire [1,3,9,10].

3. Étiologies

Tout processus exerçant un effet de masse à l'intérieur de l'orbite peut conduire à un SCO.

3.1. Causes hémorragiques

Une hémorragie aiguë dans l'espace orbitaire confiné peut rapidement compromettre la perfusion oculaire. Les données de la littérature ont montré que les hémorragies orbitaires d'étiologies diverses telles que les traumatismes, les interventions chirurgicales et les autres affections médicales sous-jacentes représentaient 64% des cas recensés [11–15].

3.1.1. Traumatisme

La cause la plus fréquente du SCO est l'hémorragie secondaire à un traumatisme facial, qui peut se produire dans le contenu de l'orbite ou au niveau sous-périosté. Cela est fréquemment observé en présence de fractures orbito-faciales [16]. L'hémorragie orbitaire compressive post-traumatique est associée dans plus de la moitié des cas à des complications cécitantes, en particulier dans les cas des fractures de type Lefort II, Lefort III et zygomatique-maxillaires [17,18]. Même en l'absence de fractures faciales évidentes, un traumatisme facial peut entraîner une hémorragie, un œdème, une compression et/ou une occlusion vasculaire [19]. Les traumatismes indirects tels que les étournelements incontrôlés, la toux, la manœuvre de Valsalva, l'accouchement et le barotraumatisme peuvent également entraîner un saignement dans l'orbite [19].

3.1.2. Chirurgie orbitaire

La chirurgie est une cause iatrogène importante d'hémorragie orbitaire, rapportée dans les chirurgies orbitaires, des paupières et des voies lacrymales. Les injections péri- ou rétrobulbaires, couramment utilisées pour l'anesthésie, peuvent également entraîner une hémorragie orbitaire.

L'hémorragie orbitaire postopératoire est bien décrite après une intervention chirurgicale dans laquelle le septum orbitaire est rompu [20]. Des cas d'hémorragie orbitaire ont été rapportés lors de la réparation de fractures orbitaires et de biopsies de l'orbite [21]. Les procédures d'oculoplastie présentant un risque d'hémorragie incluent la blépharoplastie et la dacryocystorhinostomie [21,22].

L'incidence d'hémorragie orbitaire associée à la blépharoplastie est de 0,05% (1 sur 2 000), et celle de perte visuelle permanente est de 0,04 à 0,0045% (1 sur 2 500 à 1 sur 20 000) [23]. La majorité de ces cas surviennent dans les 3 premières heures après l'intervention, et le risque diminue significativement après 24 heures [23]. L'hémorragie dans l'orbite se produit lorsque le septum est rompu pendant l'excision de la graisse pré-aponévrotique. Une traction sur la graisse orbitaire peut également provoquer des ruptures des vaisseaux orbitaires profonds. La vasodilatation réflexe après l'arrêt des effets de l'épinéphrine peut également contribuer à l'hémorragie postopératoire [23].

Le SCO peut se développer suite à une hémorragie rétrobulbaire après des injections locales intraorbitaires, péribulbaires

et rétrobulbaires. L'hémorragie rétrobulbaire survient dans moins de 2% des injections anesthésiques rétrobulbaires et péribulbaires et peut entraîner une perte visuelle dévastatrice si elle n'est pas prise en charge rapidement [13].

De plus, une hémorragie orbitaire peut également survenir à la suite d'interventions non ophtalmologiques. Elle peut survenir après une chirurgie sinusienne, maxillofaciale, orthognathique ou neurochirurgicale impliquant les fosses crâniennes antérieure ou moyenne [24,25]. En effet, l'hémorragie orbitaire est la complication ophtalmologique la plus courante de la chirurgie endoscopique des sinus, avec une incidence de 0,12% [26]. Les saignements artériels provenant des artères ethmoïdales peuvent conduire au SCO [26]. Dans l'étude de Giroto et al, la cause la plus fréquente de perte visuelle après la réparation des fractures faciales (18 sur 27 cas, soit 67%) était une augmentation de la pression orbitaire due à l'hémorragie [26].

3.1.3. Hémorragie dans les lésions préexistantes

En plus des traumatismes et des chirurgies, une hémorragie orbitaire aiguë peut survenir dans le cadre de maladies sous-jacentes telles que des anomalies veineuses, des malformations lymphatiques, un anévrisme de l'artère ophtalmique, une myosite orbitaire, une métastase orbitaire d'une tumeur extraoculaire, une sinusite chronique ou un carcinome naso-sinusien. Les malformations veineuses orbitaires et les lymphangiomes peuvent se compliquer d'une hémorragie intra-lésionnelle aiguë entraînant un SCO [27].

3.1.4. Causes médicales

Les traitements anticoagulants, tels que l'aspirine et d'autres agents anti-inflammatoires non stéroïdiens, la warfarine et le clopidogrel, peuvent jouer un rôle dans le développement du SCO après une chirurgie ou un traumatisme. Les remèdes à base de plantes, tels que le ginkgo biloba, le ginseng et l'ail, peuvent avoir un effet similaire [28].

Un cas de SCO bilatéral secondaire à des hémorragies rétrobulbaires après une thrombolyse pour un infarctus du myocarde a été décrit [15]. Les patients présentant des dyscrasies sanguines, telles que l'anémie sévère, la maladie de von Willebrand, l'hémophilie, la leucémie ou la drépanocytose sont également plus susceptibles de présenter des saignements incontrôlés [19]. De plus, l'hémorragie intraorbitaire dans le cadre d'une coagulation intravasculaire disséminée (CIVD) ou du syndrome des antiphospholipides (SAPL) peut entraîner un SCO [29].

3.2. Oedème orbitaire

L'accumulation de liquide dans l'orbite peut entraîner un SCO dans certaines situations, en particulier après une chirurgie prolongée en position ventrale (généralement après une chirurgie du rachis) [30]. Cela peut également se produire suite à des brûlures chimiques faciales/périoculaires, où les dommages tissulaires entraînent une importante extravasation de liquide. Ce problème est souvent exacerbé par une perte d'élasticité des paupières et une réanimation massive après des brûlures étendues [30]. Prodhon P et al ont décrit un SCO survenu après une asphyxie traumatique. En effet, l'hypoxie prolongée entraîne un syndrome de fuite capillaire massive et une accumulation de liquide dans l'orbite [31].

3.3. Emphysème orbitaire

L'emphysème orbitaire est une cause rare de SCO, souvent observée en présence d'une fracture de la paroi orbitaire associée à une histoire de toux, de mouchage fréquent du nez ou d'éternuement [32]. Il peut également survenir en l'absence de fracture, comme après une chirurgie rétinienne ou une blessure par gaz comprimé [33,34]. La cellulite orbitaire fulminante, avec ou sans abcès orbitaire concomitant, est une cause reconnue de SCO [21] (**Figure 2**).



Figure 2. (a) Patiente atteinte d'un syndrome de compartiment orbitaire gauche secondaire à un emphysème orbitaire. (b) Coupe axiale tomodensitométrique passant par le nerf optique montrant un emphysème intraorbitaire et sous-cutané [3].

3.4. Cellulite orbitaire

La cellulite orbitaire est un processus infectieux survenant principalement chez les enfants et les jeunes adultes, souvent associé à une maladie des sinus [7]. Une infection fulminante avec une inflammation orbitaire se développant rapidement peut entraîner un SCO. La formation d'un abcès sous-périosté seul ou en association avec une cellulite orbitaire peut entraîner une augmentation aiguë de la pression orbitaire [35]. Le SCO peut se présenter comme une détérioration aiguë de la vision chez un patient atteint de cellulite orbitaire connue. Des cas rares de cellulite orbitaire sévère compliquant une chirurgie du strabisme ou après une injection péribulbaire ont été signalés [21,36] (**Figure 3**).



Figure 3. Cellulite orbitaire [37].

3.5. Fistule carotido-caverneuse

La fistule carotido-caverneuse est une pathologie rare mais non exceptionnelle, dont l'étiologie traumatique est retrouvée dans près de 75% des cas [38]. Anatomiquement, la partie intra-caverneuse de l'artère carotide interne est le seul système artériel du corps à traverser un important plexus veineux. Un traumatisme direct ou indirect de la région crânio-faciale peut affaiblir la paroi musculaire de l'artère carotide interne et provoquer une véritable lacération, créant ainsi un shunt vasculaire entre une artère à haut débit et un sinus veineux à faible débit, formant ainsi la fistule [39].

Cliniquement, les symptômes peuvent apparaître dans les heures suivant le traumatisme ou être retardés de plusieurs mois voire années. Ils sont principalement caractérisés par des signes

ophtalmologiques, notamment un ptosis, une exophtalmie unilatérale et pulsatile, accompagnée d'un souffle systolodiastolique lors de l'auscultation de la région périorbitaire et temporale. Ce souffle disparaît lors de la compression manuelle de l'artère carotide du même côté au niveau du cou [40]. D'autres symptômes peuvent inclure une diplopie, une ophtalmoplégie, une baisse de l'acuité visuelle et une augmentation de la pression intraoculaire. Des céphalées et des bourdonnements d'oreille peuvent également être présents.

La neuro-imagerie joue un rôle essentiel dans le diagnostic et le traitement des fistules carotido-caverneuses post-traumatiques. La tomodensitométrie permet de quantifier l'exophtalmie, de rechercher une dilatation de la veine ophtalmique supérieure et de détecter un bombement du sinus caverneux, qui sont des signes indirects de la fistule [41]. L'imagerie par résonance magnétique présente peu d'intérêt car elle fournit les mêmes informations que la tomodensitométrie [42].

Le système de classification universellement adopté dans la littérature pour les fistules carotido-caverneuses est celui de Barrow et al [43] : Le type A correspond à une communication directe entre l'artère carotide interne et le sinus caverneux. Le type B est une fistule durale entre la branche méningée de l'artère carotide interne et le sinus caverneux. Le type C est une fistule durale entre la branche méningée de l'artère carotide externe et le sinus caverneux. Finalement, le type D est une combinaison des types B et C. Il est important de noter que les fistules carotido-caverneuses directes, classées en tant que type Barrow A, sont des shunts à haut débit et se produisent trois fois plus souvent que les types indirects [44]. L'avènement de la neuroradiologie interventionnelle a révolutionné la prise en charge de ces fistules. Non traitées, elles peuvent mettre en jeu le pronostic vital (hémorragies cérébrales ou sous-arachnoïdiennes, épistaxis fulgurante) et fonctionnel du patient (hypertonie oculaire, atrophie optique, baisse de l'acuité visuelle) [38,40]. Le traitement consiste en une embolisation artérielle sélective permettant de fermer la fistule à l'aide d'un ballonnet interne libérable, introduit par voie artérielle tout en préservant l'axe carotidien interne [45].

3.6. Causes iatrogènes

Plusieurs causes rares de SCO ont été rapportées dans la littérature. L'infiltration accidentelle de l'orbite par du sérum physiologique ou de la pommade antimicrobienne pendant une chirurgie des sinus a été observée pour induire immédiatement une orbite tendue avec proptose [46,47]. Des cas de SCO liés à des traitements endovasculaires ont également été signalés. Dans l'un de ces cas, cela s'est produit lors de la prise en charge d'une malformation vasculaire faciale avec un agent sclérosant, une petite quantité de traitement a accidentellement "fui" dans l'espace

l'espace orbitaire, provoquant un SCO [48]. Paul Ikgan Sia et al [49] ont rapporté la survenue d'un SCO suite à une thrombose de la veine ophtalmique supérieure qui s'est développée le premier jour après l'embolisation d'une fistule carotido-caverneuse. En effet, l'embolisation a été placée près de l'entrée de la veine dans le sinus caverneux, entraînant l'extension du thrombus et l'obstruction du retour veineux de l'orbite.

Il y a d'autres rapports de cas rares extra-orbitaires et systémiques compliqués par un SCO : Un SCO bilatéral a été rapporté comme une complication inhabituelle du lupus érythémateux systémique neuropsychiatrique, du syndrome de Richter (la transformation d'une leucémie lymphoïde chronique en un lymphome agressif) et de la CIVD [50–52]. Takahashi et al ont décrit un cas de SCO survenu après une biopsie d'une tumeur nasale. Cette tumeur a entraîné une invasion de l'orbite en 3 jours après la biopsie. Elle a été identifiée ultérieurement sur le plan histologique comme étant une fibrose angiocentrique éosinophile qui est une masse inflammatoire rare, généralement progressive.

Le large éventail d'étiologies souligne l'importance pour les ophtalmologistes d'être attentifs à la possibilité de SCO, non seulement dans les cas plus courants tels que l'hémorragie rétrobulbaire traumatique, mais également chez tout patient présentant une baisse de vision et une proptose.

4. Diagnostic

Le diagnostic de SCO repose souvent sur l'anamnèse et les signes cliniques, sans nécessiter d'examens radiologiques. Les facteurs favorisants possibles tels qu'un traumatisme récent, une chirurgie maxillofaciale, une maladie des sinus, des maladies oncologiques ou des conditions inflammatoires systémiques doivent être exclus. Les facteurs de risque d'aggravation de l'hémorragie doivent également être recherchés. Ceux-ci incluent les pathologies de la crase sanguine ou l'utilisation de médicaments anticoagulants, antiplaquettaires ou thrombolytiques [15]. D'autres médicaments pouvant affecter la coagulation tels que les corticostéroïdes, les anti-inflammatoires non stéroïdiens et les compléments alimentaires à base de plantes (ginkgo, ail, ginseng et gingembre) peuvent également être incriminés [21].

4.1. Anamnèse

L'anamnèse est utile pour établir la possibilité de SCO. Les antécédents de traumatisme récent, de diminution subjective de la vision ou de diplopie sont des points importants à élucider [1,3,21,25,36]. Les antécédents de coagulopathie ou d'anticoagulation pharmacologique, des antécédents de chirurgie orbitaire ou périoculaire/périorbitaire récente, y compris une chirurgie des sinus, des antécédents de malformations vasculaires orbitaires, une infection récente, y compris une cellulite orbitaire ou une orbitite, et une sinusite aiguë ou chronique doivent être minutieusement recherchés [1,20,46,47].

4.2. Signes fonctionnels

Le patient se plaint généralement d'une baisse de vision, de douleurs et d'une protrusion de l'œil et des annexes, avec ou sans diplopie [25,46,47,53].

4.3. Examen clinique

L'examen du patient doit être entamé rapidement en cas de suspicion de SCO, afin de ne pas retarder le traitement [21]. Le patient présente généralement un œdème ou un hématome marqué des paupières, associé à une protrusion du globe oculaire, un chémosis et, dans certains cas, une hémorragie sous-conjonctivale étendue [1]. La vision est souvent nettement réduite, avec souvent une absence de perception lumineuse (PL négative), ainsi qu'un déficit pupillaire afférent relatif [21]. La vision des couleurs peut

être un marqueur sensible de la gravité de la maladie, en particulier s'il existe une vision modérément bonne [21].

Lors de la palpation bidigitale, on observe souvent une résistance à la rétropropulsion et un globe oculaire, indiquant une pression intraoculaire élevée. La sensibilité peut également être diminuée dans le territoire des nerfs supraorbitaire et infra-orbitaire. L'examen des mouvements oculaires peut révéler une ophtalmoplégie externe significative ou même complète [3].

Le globe oculaire lui-même doit être examiné pour rechercher des complications d'un traumatisme contondant ou d'une rupture, en fonction de l'anamnèse. Le segment postérieur peut être normal ou présenter une congestion veineuse, des pulsations artérielles ou une occlusion de l'artère centrale de la rétine [21].

4.4. Examens complémentaires

4.4.1. Tests de laboratoire

La numération formule sanguine (NFS) et la biochimie sanguine peuvent être utiles dans le cadre d'un bilan de base chez un patient présentant des antécédents de traumatisme ou de cellulite [7,35]. Cependant, les évaluations sériques les plus utiles dans ce contexte sont le temps de prothrombine (TP), le temps de céphaline activée (TCA) et l'INR (International Normalized Ratio) pour diagnostiquer l'anticoagulation ou la coagulopathie, ce qui pourrait prédisposer le patient à une hémorragie rétrobulbaire et orbitaire [2].

4.4.2. Examens radiologiques

Le diagnostic du SCO est avant tout clinique. Aucun examen radiographique ne doit retarder le traitement si la suspicion clinique est forte, en particulier s'il y a une diminution ou une perte visuelle [1,20,46,47,49]. La présence d'une fracture orbitaire "décompressive" ne supprime pas la possibilité du SCO [21].

L'imagerie par tomодensitométrie peut s'avérer nécessaire pour établir le diagnostic dans les cas moins graves ou le diagnostic reste incertain et la vision demeure intacte. Elle peut aider à localiser un hématome, un emphysème, un corps étranger ou une expansion des tissus mous [21]. Cela peut être utile pour guider la décision de procéder à une décompression orbitaire supplémentaire après la prise en charge initiale. Un étirement du nerf optique ou un 'globe tenting' indique un déplacement vers l'avant du globe oculaire [51] (Figure 4). Un angle postérieur entre le globe oculaire et la sclère postérieure inférieur à 120° indique une exophtalmie sévère et suggère un risque accru de perte visuelle irréversible [21] (Figure 4).

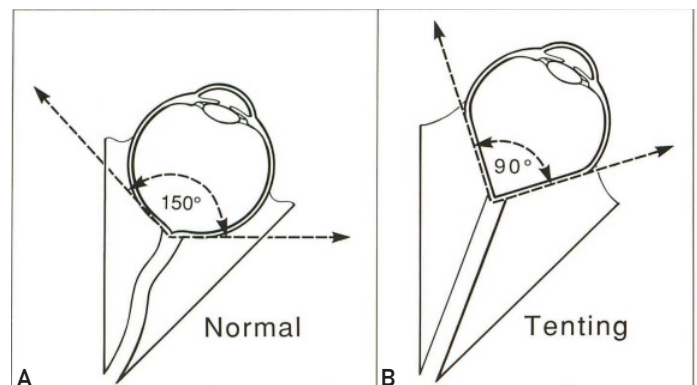


Figure 4. (A) Orbite normale avec un globe oculaire sphérique. L'angle postérieur du globe, formé par les lignes tangentes médiales et latérales de la marge postérieure du globe au niveau de l'insertion du nerf optique mesure normalement 150°. (B) Schéma d'une orbite avec globe tenting montre une exophtalmie axiale de l'œil, un étirement du nerf optique et l'aplatissement des marges latérales du globe. L'angle postérieur du globe s'est rétréci. Les angles postérieurs du globe inférieurs à 130° sont anormaux et indiquent une tente du globe [12].

Une distance entre le globe et l'apex orbitaire (plus longue dans l'œil affecté) et l'angle de tension (l'angle entre l'insertion du muscle droit médian et le nerf optique) ont été décrits comme des mesures supplémentaires prédicteurs de mauvais pronostic au cours du SCO [54].

En cas de traumatisme, la tomodynamométrie doit toujours être le premier examen radiographique réalisé. Le traitement initial ne doit pas être retardé en attendant les examens d'imagerie et/ou leurs résultats [9].

Lorsqu'une anomalie vasculaire est suspectée comme étant la cause du SCO, l'imagerie par résonance magnétique (IRM) est utile. L'angio-IRM peut aider à trouver des malformations veineuses ou artérielles, une lymphangiomatose de l'orbite ou des pathologies des artères carotides [55].

5. Prise en charge

5.1. Gestion chirurgicale

Si un SCO est suspectée et qu'il y a des signes compromettant le nerf optique, une décompression chirurgicale urgente est le principal traitement [1,9,19,20]. Une approche courante de première intention pour réduire la pression intraorbitaire est la réalisation d'une canthotomie et d'une cantholyse latérales (LC/C) [21]. Cette technique doit être faite rapidement au lit du patient sous anesthésie locale. Son efficacité a été largement décrite dans la réduction de la pression orbitaire sur des cadavres [18,56]. Cependant, pas de consensus sur le bénéfice supplémentaire de la septolyse [9]. La décompression orbitaire osseuse peut être envisagée en complément à la LC/C [57]. Certains auteurs ont souligné l'importance, non seulement du traitement précoce, mais aussi de s'assurer que la décompression était adéquate. Dans certains cas, une LC/C précoce ne décompresse pas l'orbite, et la vision reste négative malgré la décompression chirurgicale [57]. La décision de réaliser une décompression orbitaire osseuse secondaire n'est pas toujours simple, l'amélioration de l'acuité visuelle peut ne pas être immédiate après la LC/C malgré une amélioration de la pression intraorbitaire.

La chirurgie doit également cibler la cause primaire du SCO. Par exemple, en cas de SCO secondaire à de l'air, un abcès ou un hématome, ces éléments doivent être drainés et la source de l'hémorragie identifiée et cautérisée [8,19,46,47,55]. Cela peut être réalisé en utilisant diverses approches chirurgicales, notamment trans-orbitaire, trans-sinusienne, ou transcrânienne.

Selon les données de la littérature, la stratégie adoptée par les différents auteurs en cas de suspicion de SCO est de réaliser une LC/C en urgence. Si cela n'entraîne pas d'amélioration claire des signes et des symptômes visuels, il est recommandé d'obtenir ou de revoir l'imagerie orbitaire pour localiser l'hématome ou toute autre pathologie causale [3,9,21,25]. Pour une lésion orbitaire diffuse ou médiane, une approche conjointe avec l'oto-rhino-laryngologiste est préférée. Cela permet une décompression de la paroi médiane par voie endonasale et/ou l'évacuation d'un hématome. Pour les lésions principalement supérieures, une orbitotomie antérieure par une incision dans le pli de la paupière est préférée, et pour les lésions inférieures, une approche "paupière basculante" offre un excellent accès [21,58].

Technique chirurgicale (Figure 5) :

- **La canthotomie latérale** : est une intervention chirurgicale qui expose le ligament canthal latéral (LCT) sans réduire la pression intraorbitaire. Elle est réalisée en injectant 1 à 2 cc d'anesthésique local dans le LCT, suivi de l'application d'une pince tissulaire pour la dévascularisation et l'hémostase. Ensuite, une incision cutanée d'environ 1 cm est pratiquée le long de la face interne du canthus latéral, s'étendant jusqu'au rebord orbital osseux latéral. Cette procédure expose les tissus adipeux orbitaux sans augmenter significativement la laxité de la paupière.

- **Cantholyse inférieure** : Dans cette étape d'une LC/C, après avoir exposé le rebord orbital par une canthotomie latérale, le ligament

canthal latéral (LCT) est identifié par palpation autour de son point d'insertion inférieure. L'insertion inférieure du LCT est isolé, puis coupé. Cette étape permet une diminution significative du volume intraorbitaire et de la pression intraorbitaire, rendant la paupière inférieure complètement mobile. Habituellement, l'incision guérit spontanément, mais une intervention chirurgicale de réparation peut être nécessaire en cas de déformation oculoplastique ou esthétique.

5.2. Traitement médical

Le traitement médical peut être utilisé en complément à la chirurgie décompressive ou en première intention dans les cas moins graves où la vision est préservée [1,3,20,21,46]. Ces thérapies sont utilisées dans le but de réduire la pression à l'intérieur de l'orbite, bien que leur efficacité dans la prise en charge du SCO n'ait pas été établie [21].

Les traitements les plus utilisés incluent :

- Acétazolamide IV ou mannitol IV : Ces médicaments sont utilisés pour réduire la pression intraoculaire (PIO) et peuvent aider à gérer une pression orbitaire élevée. Ils agissent comme des diurétiques, réduisant l'accumulation de liquide et ainsi diminuant la PIO [21].

- Méthylprednisolone IV : Certains chirurgiens peuvent utiliser des corticoïdes IV comme le méthylprednisolone pour réduire l'œdème des tissus orbitaires, qui peut être un facteur contributif à l'augmentation de la pression intraorbitaire. Cependant, il est important de noter que l'efficacité de ce traitement n'est pas prouvée de manière concluante [21].

- Traitement de la cause sous-jacente : Si le SCO est causé par une affection sous-jacente telle que la cellulite orbitaire, une thérapie antibiotique IV peut être administrée pour traiter l'infection [35].

5.3. Moment de l'intervention

Le SCO est une affection rare et potentiellement cécitante [14,16,26]. Le diagnostic rapide et le début du traitement sont cruciaux pour maximiser les chances de récupération visuelle [9]. Hayreh et al. ont rapporté une ischémie rétinienne chez des singes rhésus après clampage du nerf optique, entraînant des lésions irréversibles après 105 minutes. Cependant, ils ont montré qu'une récupération est possible lorsque le clampage dure moins de 97 minutes [59].

Cliniquement, la plupart des patients traités dans les 2 heures suivant l'apparition des symptômes obtiennent une AV finale supérieure à 5/10, bien que près de 15% aient une AV finale inférieure à 5/10. Pour les patients traités après 2 heures, les résultats rapportés sont moins bons, avec environ 25% des patients atteignant une AV finale de 5/10 ou meilleure [60]. Pour les cas qui récupèrent une bonne AV malgré un traitement après 2 heures, plus de 50% avaient une AV initiale supérieure ou égale à 5/10. Cela suggère que dans les cas moins graves, un traitement au-delà de 2 heures est susceptible de conduire à une récupération de la vision [60].

Il existe également des rapports de cas de récupération visuelle après une décompression retardée de 5 jours [33], voire sans décompression du tout [57]. Il est donc envisageable d'envisager une décompression orbitaire dans les cas de présentation tardive.

Il convient de noter que, bien que l'AV est souvent utilisée comme un indicateur grossier du pronostic final, il peut y avoir d'autres formes de déficit visuel. Certains patients peuvent présenter des déficits significatifs du champ visuel et une pâleur du nerf optique malgré une bonne AV [61].

La récupération de la vision après la décompression n'est pas toujours immédiate, avec une amélioration continue de l'AV pouvant être observée jusqu'à 4 semaines après l'intervention [62]. La pression intraoculaire peut ensuite être utilisée comme un indicateur de la décompression. La période après traitement du SCO est très limitée dans la plupart des cas publiés dans la littérature [18,56,57]. Il est raisonnable de supposer que le suivi à long terme pourrait montrer une meilleure AV finale et que certaines

données concernant une amélioration moins marquée de l'AV pourraient être attribuables à la courte période de suivi.

6. Complications

Un SCO non traité, peut entraîner une cécité permanente en interrompant l'apport sanguin aux vasa nervorum du nerf optique ainsi que la perfusion de l'artère rétinienne [19,56,57]. Une étude sur des singes rhésus a indiqué que la rétine pourrait subir des dommages irréparables après interruption de sa perfusion pendant un peu moins de 75 minutes [8].

7. Pronostic

L'indicateur pronostique le plus important est le délai jusqu'à la décompression orbitaire, les meilleurs résultats étant obtenus

quand le rétablissement de la perfusion sanguine dans l'orbite ne dépasse pas les deux heures suivant le début du SCO [1,3,20,47]. Certaines études ont montré un pronostic plus défavorable chez les patients plus âgés ainsi que chez les patients présentant plus de bombement du globe oculaire à l'imagerie [12,57].

7.1. Temps écoulé avant le traitement

Plusieurs études suggèrent qu'un traitement tardif est plus susceptible d'entraîner une perte de vision permanente. Hislop et al [10] ont rapporté l'installation d'une cécité complète chez 4 patients pris en charge tardivement pour un SCO secondaire à une hémorragie rétrobulbaire. En revanche, les deux cas traités rapidement par décompression orbitaire associée au traitement médical ont complètement récupéré leur vision. Une autre étude menée par Lima et al a montré une récupération visuelle chez la



Figure 5. Les étapes de la procédure de canthotomie latérale et de cantholyse inférieure. (A,B) Anesthésie locale, (C) clampage et hémostase, (C,D) incision du canthus latéral, (E,F) section du pilier inférieur du tendon canthal latéral [4].

majorité (12/16) des patients atteints d'un SCO secondaire à une hémorragie orbitaire aigue traités en moyenne 30 heures après l'apparition des symptômes [21].

7.2. Compression du globe oculaire

L'importance du 'tenting' du globe sur les clichés radiologiques reflète le caractère aigu de l'exophtalmie et peut prédire l'atteinte visuelle. Un angle postérieur du globe inférieur à 120 degrés avec une exophtalmie aigue est associé à un pronostic moins favorable, avec un risque accru de perte de vision permanente [12].

7.3. Âge

Dans une série de 10 patients atteints du SCO avec un 'tenting' du globe oculaire, Dalley et al [12] ont constaté que les patients plus jeunes récupéraient plus complètement. De plus, les patients plus âgés présentaient une perte visuelle plus sévère. Lima et al [21] ont démontré que 81 % des cas de SCO ont survécu chez des patients de plus de 20 ans. Le SCO était secondaire à un traumatisme dans 45 % des cas et à une chirurgie dans 32 % des cas. Bien que la moitié des jeunes patients atteints de SCO aient été associés à un traumatisme ou à une chirurgie, les enfants ont également présenté une plus grande proportion d'infections orbitaires et de lésions congénitales associées à une hémorragie orbitaire (varices, lymphangiome, kystes).

8. Prévention primaire

Chez les patients ayant des antécédents de traumatisme récent, de fracture orbitaire ou de chirurgie orbitaire, des mesures préventives comprennent l'évitement de la manœuvre de Valsalva ou de mouchage, ainsi que l'administration d'antiémétiques lorsque cela est indiqué [21]. L'anticoagulation doit être entreprise avec prudence ou interrompue si possible. Ces médicaments sont généralement arrêtés avant l'intervention chirurgicale et repris de manière judicieuse après la chirurgie orbitaire ou périorbitaire [58,63]. Chez un patient présentant une hémorragie orbitaire sans SCO, une surveillance étroite est nécessaire pendant au moins 6 heures pour s'assurer qu'il n'y a pas de saignement continu. La protection oculaire et d'autres mesures préventives contre les traumatismes doivent toujours être encouragées.

9. Conclusion

Le SCO est une affection rare mais gravissime dont l'incidence pourrait augmenter en raison de l'augmentation de l'utilisation de l'aspirine, des antiplaquettaires et des thrombolytiques dans une population vieillissante, ainsi que de l'augmentation des traumatismes faciaux et de la chirurgie esthétique. Réduire au maximum le risque de SCO après un traumatisme ou une intervention chirurgicale revêt une importance cruciale, tout comme le diagnostic rapide et la décompression urgente. Les ophtalmologistes et les médecins d'urgence doivent maîtriser les techniques de canthotomie latérale et de cantholyse inférieure, car ces procédures simples doivent être réalisées rapidement dès l'arrivée aux urgences. Cependant, en cas de persistance de l'hypertonie oculaire, une consultation spécialisée immédiate peut s'avérer nécessaire en vue d'une décompression orbitaire.

Références

1. Turgut B, Karanfil FC, Turgut FA. Orbital Compartment Syndrome. *Beyoglu Eye J*. 12 févr 2019;4(1):1-4.
2. Acute Orbital Compartment Syndrome: Background, Anatomy, Pathophysiology. 20 juill 2021 [cité 9 oct 2023]; Disponible sur: <https://emedicine.medscape.com/article/799528-overview?form=fpf>
3. McCallum E, Keren S, Lapira M, Norris JH. Orbital Compartment

4. Syndrome: An Update With Review Of The Literature. *Clin Ophthalmol Auckl NZ*. 7 nov 2019;13:2189-94.
5. Guldager MJ, Alanin MC, Danquart J. [Traumatic orbital compartment syndrome]. *Ugeskr Laeger*. 24 janv 2022;184(4):V05210459.
6. Reinshagen KL, Massoud TF, Cunnane MB. Anatomy of the Orbit. *Neuroimaging Clin N Am*. nov 2022;32(4):699-711.
7. Burkat CN, Lemke BN. Anatomy of the Orbit and Its Related Structures. *Otolaryngol Clin North Am*. 1 oct 2005;38(5):825-56.
8. Bass LS, Kaminer MS. Insights Into the Pathophysiology of Cellulite: A Review. *Dermatol Surg Off Publ Am Soc Dermatol Surg Al*. oct 2020;46 Suppl 1(1):S77-85.
9. Hargaden M, Goldberg SH, Cunningham D, Breton ME, Griffith JW, Lang CM. Optic neuropathy following simulation of orbital hemorrhage in the nonhuman primate. *Ophthalm Plast Reconstr Surg*. déc 1996;12(4):264-72.
10. Haubner F, Jägle H, Nunes DP, Schleder S, Cvetkova N, Kühnel T, et al. Orbital compartment: effects of emergent canthotomy and cantholysis. *Eur Arch Oto-Rhino-Laryngol Off J Eur Fed Oto-Rhino-Laryngol Soc EUFOS Affil Ger Soc Oto-Rhino-Laryngol - Head Neck Surg*. févr 2015;272(2):479-83.
11. Hislop WS, Dutton GN. Retrobulbar haemorrhage: can blindness be prevented? *Injury*. déc 1994;25(10):663-5.
12. Gerbino G, Ramieri GA, Nasi A. Diagnosis and treatment of retrobulbar haematomas following blunt orbital trauma: a description of eight cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*. mars 2005;34(2):127-31.
13. Dalley RW, Robertson WD, Rootman J. Globe tenting: a sign of increased orbital tension. *AJNR Am J Neuroradiol*. 1989;10(1):181-6.
14. Burkat CN, Lemke BN. Retrobulbar hemorrhage: inferolateral anterior orbitotomy for emergent management. *Arch Ophthalmol Chic Ill* 1960. sept 2005;123(9):1260-2.
15. Anderson RL, Edwards JJ. Bilateral visual loss after blepharoplasty. *Ann Plast Surg*. oct 1980;5(4):288-92.
16. Ahmar W, Mason K, Harley N, Hogan C. An unusual complication of thrombolysis--bilateral retro-orbital haematomata. *Anaesth Intensive Care*. avr 2005;33(2):271-3.
17. Wood GD. Blindness following fracture of the zygomatic bone. *Br J Oral Maxillofac Surg*. févr 1986;24(1):12-6.
18. Thyne GM, Luyk NH. Zygomatic bone fractures complicated by retrobulbar haemorrhage. *N Z Dent J*. avr 1992;88(392):60-3.
19. Yung CW, Moorthy RS, Lindley D, Ringle M, Nunery WR. Efficacy of lateral canthotomy and cantholysis in orbital hemorrhage. *Ophthalm Plast Reconstr Surg*. juin 1994;10(2):137-41.
20. Sharma S, Wilcsek GA, Francis IC, Lee D, Coroneo MT, Harrison H, et al. Management of acute surgical orbital haemorrhage: an otorhinolaryngological and ophthalmological perspective. *J Laryngol Otol*. août 2000;114(8):621-6.
21. Li KK, Meara JG, Rubin PA. Orbital compartment syndrome following orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg Off J Am Assoc Oral Maxillofac Surg*. août 1995;53(8):964-8.
22. Lima V, Burt B, Leibovitch I, Prabhakaran V, Goldberg RA, Selva D. Orbital compartment syndrome: the ophthalmic surgical emergency. *Surv Ophthalmol*. 2009;54(4):441-9.
23. Hurwitz JJ, Eplett CJ, Fliss D, Freeman JL. Orbital hemorrhage during dacryocystorhinostomy. *Can J Ophthalmol J Can Ophthalmol*. avr 1992;27(3):139-42.
24. Hass AN, Penne RB, Stefanyszyn MA, Flanagan JC. Incidence of postblepharoplasty orbital hemorrhage and associated visual loss. *Ophthalm Plast Reconstr Surg*. nov 2004;20(6):426-32.
25. Forrest CR, Khairallah E, Kuzon WM. Intraocular and intraorbital compartment pressure changes following orbital bone grafting: a clinical and laboratory study. *Plast Reconstr Surg*. juill 1999;104(1):48-54.
26. Li KK, Meara JG, Rubin PA. Orbital compartment syndrome following orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg Off J Am Assoc Oral Maxillofac Surg*. août 1995;53(8):964-8.
27. Giroto JA, Gamble WB, Robertson B, Redett R, Muehlberger T, Mayer M, et al. Blindness after reduction of facial fractures. *Plast Reconstr Surg*. nov 1998;102(6):1821-34.
28. Sullivan TJ, Wright JE. Non-traumatic orbital haemorrhage. *Clin Experiment Ophthalmol*. févr 2000;28(1):26-31.

28. Chorich LJ, Derick RJ, Chambers RB, Cahill KV, Quartetti EJ, Fry JA, et al. Hemorrhagic ocular complications associated with the use of systemic thrombolytic agents. *Ophthalmology*. mars 1998;105(3):428-31.
29. Vaphiades MS, Brock W, Brown HH, Petursson G, Westfall CT. Catastrophic antiphospholipid antibody syndrome manifesting as an orbital ischemic syndrome. *J Neuro-Ophthalmol Off J North Am Neuro-Ophthalmol Soc*. déc 2001;21(4):260-3.
30. Sullivan SR, Ahmadi AJ, Singh CN, Sires BS, Engrav LH, Gibran NS, et al. Elevated orbital pressure: another untoward effect of massive resuscitation after burn injury. *J Trauma*. janv 2006;60(1):72-6.
31. Prodhon P, Noviski NN, Butler WE, Eskandar E, Ellen Grant P, Whalen MJ. Orbital compartment syndrome mimicking cerebral herniation in a 12-yr-old boy with severe traumatic asphyxia. *Pediatr Crit Care Med J Soc Crit Care Med World Fed Pediatr Intensive Crit Care Soc*. juill 2003;4(3):367-9.
32. Roelofs KA, Starks V, Yoon MK. Orbital Emphysema: A Case Report and Comprehensive Review of the Literature. *Ophthal Plast Reconstr Surg*. 2019;35(1):1-6.
33. Mellington FE, Bacon AS, Abu-Bakra MAJ, Martinez-Devesa P, Norris JH. Orbital compressed air and petroleum injury mimicking necrotizing fasciitis. *J Emerg Med*. sept 2014;47(3):e69-72.
34. Rodríguez-Cabrera L, Rodríguez-Loaiza JL, Tovilla-Canales JL, Zuazo F. Orbital Emphysema as a Rare Complication of Retina Surgery. *Ophthal Plast Reconstr Surg*. 2017;33(6):e141-2.
35. Korinith MC, Weinzierl MR, Banghard W, Gilsbach JM. Extended pterional orbital decompression in severe orbital cellulitis. *Acta Neurochir (Wien)*. avr 2003;145(4):283-7; discussion 287.
36. Prodhon P, Noviski NN, Butler WE, Eskandar E, Ellen Grant P, Whalen MJ. Orbital compartment syndrome mimicking cerebral herniation in a 12-yr-old boy with severe traumatic asphyxia. *Pediatr Crit Care Med J Soc Crit Care Med World Fed Pediatr Intensive Crit Care Soc*. juill 2003;4(3):367-9.
37. Topilow NJ, Tran AQ, Koo EB, Alabiad CR. Etiologies of Proptosis: A review. *Intern Med Rev Wash DC Online*. mars 2020;6(3):10.18103/imr.v6i3.852.
38. Oumellal J, Bekaert O, Gallas S, Leguerinel C, Palfi S, Derkaoui F, et al. Fistules carotido-caverneuses post-traumatiques à propos d'un cas et revue de la littérature. *Pan Afr Med J*. 20 août 2015;21:290.
39. Fattahi TT, Brandt MT, Jenkins WS, Steinberg B. Traumatic carotid-cavernous fistula: pathophysiology and treatment. *J Craniofac Surg*. mars 2003;14(2):240-6.
40. Jozef Č. Carotid-cavernous fistula from the perspective of an ophthalmologist A Review. *Ceska Slov Oftalmol Cas Ceske Oftalmol Spolecnosti Slov Oftalmol Spolecnosti*. 2020;1(Ahead of print):1-8.
41. Ellis JA, Goldstein H, Connolly ES, Meyers PM. Carotid-cavernous fistulas. *Neurosurg Focus*. mai 2012;32(5):E9.
42. D'Angelo L, Paglia F, Caporlingua A, Sampirisi L, Guidetti G, Santoro A. Atypical Manifestation of Direct Low-Flow Carotid-Cavernous Fistula: Case Report and Review of the Literature. *World Neurosurg*. mai 2019;125:456-60.
43. Barrow DL, Spector RH, Braun IF, Landman JA, Tindall SC, Tindall GT. Classification and treatment of spontaneous carotid-cavernous sinus fistulas. *J Neurosurg*. févr 1985;62(2):248-56.
44. Garland SD, Maloney PL, Doku HC. Carotid-cavernous sinus fistula after trauma to the head. *J Oral Surg Am Dent Assoc* 1965. oct 1977;35(10):832-5.
45. Belhachmi A. [Spontaneous bilateral carotid-cavernous fistulas: about a case and review of the literature]. *Pan Afr Med J*. 2017;27:91.
46. See A, Gan EC. Orbital compartment syndrome during endoscopic drainage of subperiosteal orbital abscess. *Am J Otolaryngol*. 2015;36(6):828-31.
47. Castro E, Seeley M, Kosmorsky G, Foster JA. Orbital compartment syndrome caused by intraorbital bacitracin ointment after endoscopic sinus surgery. *Am J Ophthalmol*. sept 2000;130(3):376-8.
48. Colletti G, Deganello A, Bardazzi A, Mattassi R, Dalmonte P, Gazzabin L, et al. Complications After Treatment of Head and Neck Venous Malformations With Sodium Tetradecyl Sulfate Foam. *J Craniofac Surg*. juin 2017;28(4):e388-92.
49. Sia PI, Sia DIT, Scroop R, Selva D. Orbital compartment syndrome following transvenous embolization of carotid-cavernous fistula. *Orbit Amst Neth*. févr 2014;33(1):52-4.
50. Hamill EB, Weber AC, Patel KR, Yen MT. Bilateral Orbital Compartment Syndrome Preceding Cerebellar Herniation in Neuropsychiatric Systemic Lupus Erythematosus. *Ophthal Plast Reconstr Surg*. 2019;35(3):e55-7.
51. Stewart CM, McDonald B, Clifford R, Norris JH. Bilateral acute orbital compartment syndrome secondary to Richter syndrome: the « tulip » sign. *Clin Experiment Ophthalmol*. nov 2016;44(8):722-4.
52. Huang S, Sun MT, Davis G, Fitzgerald J, Selva D, Henderson T. Bilateral orbital compartment syndrome in a patient with disseminated intravascular coagulation. *Orbit Amst Neth*. oct 2018;37(5):361-3.
53. Voss JO, Hartwig S, Doll C, Hoffmeister B, Raguse JD, Adolphs N. The « tight orbit »: Incidence and management of the orbital compartment syndrome. *J Cranio-Maxillo-fac Surg Off Publ Eur Assoc Cranio-Maxillo-fac Surg*. août 2016;44(8):1008-14.
54. Oester AE, Sahu P, Fowler B, Fleming JC. Radiographic predictors of visual outcome in orbital compartment syndrome. *Ophthal Plast Reconstr Surg*. 2012;28(1):7-10.
55. Wyse E, Sorte DE, Mahoney NR, Pearl MS. Orbital Compartment Syndrome Due to Acute Hemorrhage within an Orbital Lymphatic Malformation: Emergency Treatment with Percutaneous Sclerotherapy. *J Vasc Interv Radiol JVIR*. mars 2016;27(3):453-5.
56. Ballard SR, Enzenauer RW, O'Donnell T, Fleming JC, Risk G, Waite AN. Emergency lateral canthotomy and cantholysis: a simple procedure to preserve vision from sight threatening orbital hemorrhage. *J Spec Oper Med Peer Rev J SOF Med Prof*. 2009;9(3):26-32.
57. Ujam A, Perry M. Emergency management for orbital compartment syndrome—is decompression mandatory? *Int J Oral Maxillofac Surg*. 1 nov 2016;45(11):1435-7.
58. Hayek G, Mercier P, Fournier HD. Anatomy of the orbit and its surgical approach. *Adv Tech Stand Neurosurg*. 2006;31:35-71.
59. Tobalem S, Schutz JS, Chronopoulos A. Central retinal artery occlusion – rethinking retinal survival time. *BMC Ophthalmol*. 18 avr 2018;18:101.
60. Sun MT, Chan WO, Selva D. Traumatic orbital compartment syndrome: importance of the lateral canthomy and cantholysis. *Emerg Med Australas EMA*. juin 2014;26(3):274-8.
61. Maurer P, Conrad-Hengerer I, Hollstein S, Mizziani T, Hoffmann E, Hengerer F. Orbital haemorrhage associated with orbital fractures in geriatric patients on antiplatelet or anticoagulant therapy. *Int J Oral Maxillofac Surg*. déc 2013;42(12):1510-4.
62. Carrim ZI, Anderson IWR, Kyle PM. Traumatic orbital compartment syndrome: importance of prompt recognition and management. *Eur J Emerg Med Off J Eur Soc Emerg Med*. juin 2007;14(3):174-6.
63. Khare GD, Symons RCA, Do DV. Common ophthalmic emergencies. *Int J Clin Pract*. nov 2008;62(11):1776-84.

rc

CONCEPTION & DESIGN

