

## CAS CLINIQUE/CLINICAL CASE

## Un cas d'endocardite brucellienne en Tunisie

## A case of brucella endocarditis in Tunisia

Oussema HADDAR, Rania AMMAR\*, Mabrouk BAHLOUL, Chokri BEN HAMIDA

**RÉSUMÉ** **Introduction.** L'endocardite à *Brucella* (EB) est une complication rare mais grave de la brucellose, constituant la principale cause de mortalité liée à cette infection. Elle est souvent difficile à diagnostiquer en raison de ses symptômes non spécifiques et de sa faible prévalence.

**Observation.** Ce cas clinique concerne un homme de 59 ans, porteur d'une prothèse aortique mécanique, présentant une insuffisance cardiaque avec désinsertion prothétique, abcès de l'anneau aortique et hémocultures négatives. Le diagnostic a été confirmé par des tests sérologiques et la culture de la pièce opératoire, révélant une infection à *B. melitensis* liée à la consommation de lait cru non pasteurisé. Le traitement a nécessité une intervention chirurgicale pour remplacer la prothèse et drainer l'abcès, ainsi qu'une antibiothérapie prolongée combinant doxycycline, cotrimoxazole et rifampicine. Malgré les complications postopératoires, l'évolution hémodynamique et infectieuse a été favorable.

**Conclusion.** Ce cas met en évidence l'importance d'une approche multidisciplinaire, incluant des tests sérologiques ciblés et l'imagerie cardiaque, pour un diagnostic précoce. Il souligne également la nécessité d'une prise en charge chirurgicale associée à une antibiothérapie adaptée pour améliorer le pronostic des patients atteints d'EB.

**Mots clés:** Endocardite à *Brucella*, Endocardite infectieuse, Endocardite bactérienne, Brucellose, Tunisie, Afrique du Nord

**ABSTRACT** **Introduction.** *Brucella* endocarditis (BE) is a rare but serious complication of brucellosis and is the leading cause of death from this infection. It is often difficult to diagnose due to its non-specific symptoms and low prevalence.

**Observation.** This clinical case concerns a 59-year-old man with a mechanical aortic prosthesis who presented with heart failure with prosthetic disconnection, aortic annulus abscess, and negative blood cultures. The diagnosis was confirmed by serologic testing and culture of the surgical specimen, which revealed infection with *B. melitensis* associated with consumption of unpasteurized raw milk. Treatment required surgery to replace the prosthesis and drain the abscess, and prolonged antibiotic therapy with doxycycline, cotrimoxazole, and rifampicin. Despite postoperative complications, hemodynamic and infectious outcomes were favorable.

**Conclusion.** This case highlights the importance of a multidisciplinary approach, including targeted serologic testing and cardiac imaging, for early diagnosis. It also emphasizes the need for surgical management combined with appropriate antibiotic therapy to improve the prognosis of patients with BE.

**Key Words:** *Brucella* endocarditis, Infective endocarditis, Bacterial endocarditis, Brucellosis, Tunisia, North Africa

## Introduction

En Tunisie, la brucellose sévit toujours à l'état endémique et pose un problème de santé publique en recrudescence ces dernières années [5]. La complication la plus redoutable est l'endocardite à *Brucella* (EB) [1]. Elle est la cause la plus fréquente de décès [6,9]. Le diagnostic de l'EB est souvent difficile en raison de sa présentation clinique non spécifique et du faible taux de prévalence (1,3%-1,8%) limitée à quelques cas cliniques [9,11], ce qui retarde parfois la prise en charge thérapeutique appropriée [4]. La littérature ne rapporte que quelques cas d'EB sur valve mécanique [13]. Le traitement comporte une combinaison d'antibiothérapie avec un traitement chirurgical [12].

## Observation

Mr A.M. est âgé de 59 ans, originaire de Kebelli, fermier, aux antécédents d'hypertension artérielle, et atteint de dyslipidémie. Il a été opéré pour remplacement de la valvule aortique par prothèse mécanique 20 ans auparavant. Il a été hospitalisé au service de cardiologie pour tableau d'insuffisance ventriculaire gauche avec à l'examen un souffle diastolique au foyer aortique. Une échographie cardiaque transthoracique a montré un ventricule gauche non dilaté hypertrophié avec une fonction systolique conservée à 60%. La prothèse aortique n'était pas sténosante mais présentait une fuite importante du côté mitral sans image de végétation. Pour mieux qualifier cette fuite prothétique, une échographie transœsophagienne était faite montrant une désinsertion de prothèse en regard du trigone mitro-aortique avec abcédation et fuite importante. Le diagnostic d'endocardite infectieuse sur prothèse aortique compliquée de désinsertion de la prothèse était évoqué. Des séries d'hémocultures étaient réalisées, revenant négatives, et une série souillée par un *Staphylococcus* à coagulase négative. Une antibiothérapie probabiliste était instaurée à base de vancomycine 30 mg/kg et de ceftriaxone 2 g, 2 fois par jour. Le patient bénéficiait d'une chirurgie itérative « redux » avec remplacement de la prothèse aortique et mise à plat de l'abcès de l'anneau aortique (Fig. 1). Les suites opératoires immédiates étaient marquées par la survenue d'un bloc auriculoventriculaire complet à la sortie de la circulation extracorporelle, spontanément résolutif, suivi de passage en flutter à conduction variable rapide à 200/min, mal toléré, réduit par un choc électrique externe. L'évolution était

## Introduction

In Tunisia, brucellosis is still endemic and has become a public health problem with an increase in recent years [5]. The most serious complication is *Brucella* endocarditis (BE) [1]. It is the leading cause of death [6,9]. The diagnosis of BE is often difficult due to its non-specific clinical presentation and low prevalence rate (1.3%-1.8%) limited to a few clinical cases [9,11], which sometimes delays appropriate therapeutic management [4]. Only a few cases of BE on a mechanical valve have been reported in the literature [13]. Treatment consists of a combination of antibiotic therapy and surgical treatment [12].

## Observations

Mr. A.M. is a 59-year-old farmer from Kebelli with a history of hypertension and dyslipidemia. He underwent aortic valve replacement surgery with a mechanical prosthesis 20 years ago. He was admitted to the cardiology department for left ventricular failure with a diastolic murmur at the aortic root. A transthoracic echocardiogram showed a non-dilated, hypertrophied left ventricle with preserved systolic function at 60%. The aortic prosthesis was not stenotic but showed significant leakage on the mitral side without vegetation. To better characterize this prosthetic leak, transesophageal echocardiography was performed, which showed disinsertion of the prosthesis opposite the mitral-aortic trigone with abscess formation and significant leak. A diagnosis of infective endocarditis of the aortic prosthesis complicated by prosthesis dislodgement was made. Blood cultures were obtained and were negative, and one culture was contaminated with a coagulase-negative *Staphylococcus*. Probabilistic antibiotic therapy was initiated with vancomycin 30 mg/kg and ceftriaxone 2 g twice daily. The patient underwent iterative surgery "redux" with replacement of the aortic prosthesis and drainage of the aortic annulus abscess (Fig. 1). The immediate postoperative period was characterized by the onset of complete atrioventricular block on withdrawal from the extracorporeal circulation, which resolved spontaneously, followed by poorly tolerated rapid variable conduction flutter at 200/min reduced by an external electric shock. The evolution was characterized by a state of cardiogenic shock with severe left ventricular dysfunction at 15% and global hypokinesia.

marquée par un état de choc cardiogénique avec dysfonction sévère du ventricule gauche à 15 % et une hypokinésie globale. Une cure de lévosimendan était administrée avec une bonne évolution sur le plan hémodynamique et échographique (amélioration de la fonction d'éjection ventriculaire à 30, puis 40 %). Sur le plan infectieux, le patient restait fébrile avec installation d'un état de choc septique et aggravation du syndrome inflammatoire biologique. La culture de la pièce opératoire, ainsi que la sérologie de Wright (test de rose Bengale) étaient fortement positives à *B. melitensis* (1/160). L'antibiothérapie initiale était changée par l'association doxycycline, cotrimoxazole et rifampicine.

A treatment with levosimendan was administered with a good evolution in terms of hemodynamics and echography (improvement of ventricular ejection function to 30% then 40%). The patient remained febrile with the onset of septic shock and worsening of the biologic inflammatory syndrome. The culture of the surgical specimen as well as Wright's serology (rose Bengal test) were strongly positive for *B. melitensis* (1/160). Initial antibiotic therapy was changed to doxycycline, cotrimoxazole, and rifampicin.

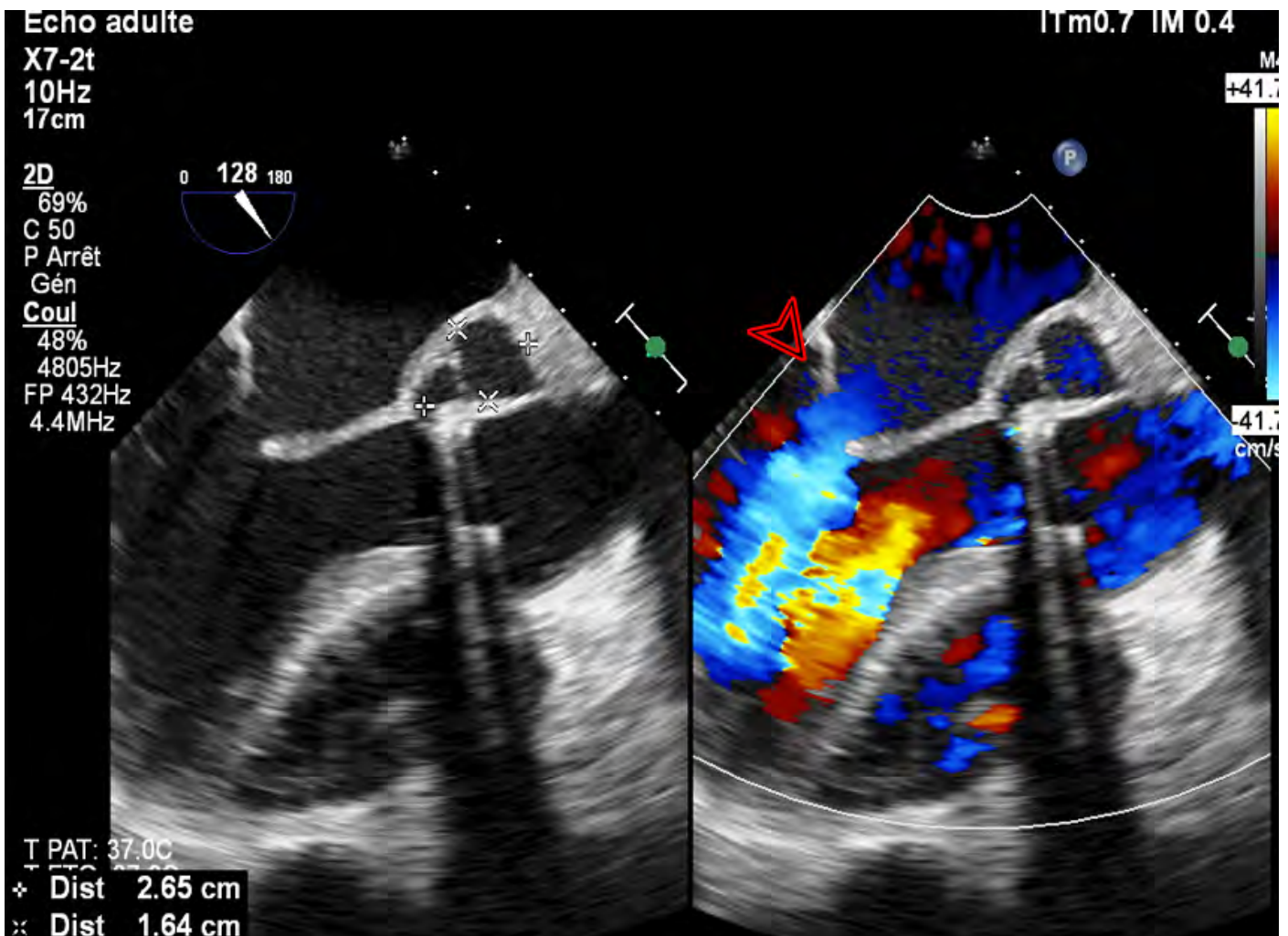


Figure 1 : Échographie trans-œsophagienne post opératoire (coupe mi-œsophagienne 3 cavités 120 degrés) montrant une collection anéchogène post détersion chirurgicale de l'abcès de l'anneau

Figure 1: Post-operative trans-esophageal ultrasound (mid-esophageal section 3 cavities 120 degrees) showing an anechogenous collection after surgical debridement of the annulus abscess

## Discussion

En Tunisie, la prévalence de l'EB a varié de 1,28 en 2003 à 8,94 pour 100 000 habitants en 2017 [5]. Dans la région du sud-ouest, comme pour le cas de notre patient originaire de Kebelli, le niveau d'endémicité le plus élevé dans le pays a été noté depuis 1995 avec des taux d'incidence toujours supérieurs à 20 cas pour 100 000 habitants par an [5]. Le diagnostic d'EB a été fait par l'interrogatoire, notamment la prise de lait cru non pasteurisé, l'échographie cardiaque ainsi que la culture et la sérologie spécifique de la brucellose. L'EB fait partie de l'endocardite infectieuse (EI) à hémoculture négative dans laquelle aucun micro-organisme causal n'est isolé à l'aide des méthodes habituelles d'hémoculture [3,7]. L'EI causée par des bacilles à Gram négatif non HACEK (espèces autres que *Haemophilus*, *Aggregatibacter*, *Cardiobacterium*, *Eikenella*, and *Kingella*) est rare [10]. Les humains se contaminent principalement par voie digestive ou cutanéomuqueuse. La contamination digestive par ingestion de lait cru ou de ses dérivés frais (fromage, lait caillé) provenant d'animaux infectés, de plus en plus fréquente, est devenue la principale voie de contamination [2], comme pour notre patient. Les EB surviennent habituellement sur une valvulopathie préalable, et intéressent la valve aortique dans 75 % des cas [8,12]. L'EB peut se compliquer de façon fréquente d'un abcès myocardique jusqu'à 43 % des cas [6]. Le diagnostic de la brucellose est difficile. Il nécessite l'isolement de la bactérie à partir d'échantillons de sang ou de tissus [4]. La sérologie de Wright est un test de première ligne confirmant le diagnostic. Cependant, il peut être faussement positif ou négatif. Le titre d'agglutination de Wright varie entre 1/20 et 1 /160. Le seuil 1/80 est spécifique et sensible [3]. Le traitement recommandé est une chirurgie précoce avec une antibiothérapie prolongée entre 3 et 6 mois basée sur une combinaison bactéricides de doxycycline (200 mg/24 h) plus cotrimoxazole (960 mg/ 12 h) et rifampicine (300– 600 mg/24 h) [1,7,11].

## Discussion

In Tunisia, the prevalence of BE has varied from 1.28 in 2003 to 8.94 per 100,000 inhabitants in 2017 [5]. In the southwestern region, as in the case of our patient from Kebelli, the highest endemicity level in the country has been observed since 1995, with incidence rates still above 20 cases per 100,000 inhabitants per year [5]. The diagnosis of brucellosis was made by interview, especially the consumption of unpasteurized raw milk, cardiac ultrasound, as well as culture and specific brucellosis serology. EB is a subset of blood culture-negative infective endocarditis (IE) in which the causative microorganism cannot be isolated by standard blood culture methods [3,7]. IE caused by non-HACEK gram-negative bacilli (species other than *Haemophilus*, *Aggregatibacter*, *Cardiobacterium*, *Eikenella*, and *Kingella*) is rare [10]. Humans are primarily contaminated by the gastrointestinal or cutaneous-mucosal route. Gastrointestinal contamination by ingestion of raw milk or its fresh derivatives (cheese, curdled milk) from infected animals, which is increasingly common, has become the main route of contamination [2], as in the case of our patient. BEs usually occur in the setting of pre-existing valvulopathy and involve the aortic valve in 75% of cases [8,12]. BE can often be complicated by a myocardial abscess in up to 43% of cases [6]. Brucellosis is difficult to diagnose. It requires isolation of the bacteria from blood or tissue samples [4]. Wright's agglutination test is a first-line test to confirm the diagnosis. However, it can be falsely positive or negative. Wright's agglutination titer varies between 1/20 and 1/160. The 1/80 threshold is specific and sensitive [3]. The recommended treatment is early surgery with prolonged antibiotic therapy between 3 and 6 months based on a bactericidal combination of doxycycline (200 mg/24 h) plus cotrimoxazole (960 mg/12 h) and rifampicin (300-600 mg/24 h) [1,7,11].

## Conclusion

Ce cas clinique illustre les défis diagnostiques posés pour le diagnostic de l'EB, en raison de la présentation souvent peu spécifique. Il met en lumière l'importance des tests sérologiques ciblés et de l'imagerie cardiaque pour détecter précocement les atteintes valvulaires. Ce diagnostic doit être évoqué en Tunisie en raison de l'endémicité de l'EB.

## Consentement éclairé

Nous avons obtenu le consentement oral du patient.

## Financement

Ce travail n'a bénéficié d'aucun financement.

## Remerciement

Dr. Olfa Gargouri, Dr. Imed Frikha

## Contributions des auteurs et de l'autrice

Oussema Haddar : conception du rapport de cas, prise en charge diagnostique et thérapeutique du patient, rédaction, révision et validation du tapuscrit.

Rania Ammar : prise en charge diagnostique et thérapeutique du patient, rédaction, révision et validation du tapuscrit.

Mabrouk Bahloul : rédaction, révision et validation du tapuscrit.

Chokri ben Hamida : rédaction, révision et validation du tapuscrit

## Conflits d'intérêts

Les auteurs ne déclarent aucun lien d'intérêts lié à ce travail.

## Conclusion

This clinical case illustrates the diagnostic challenges posed by the often nonspecific presentation of BE. It highlights the importance of targeted serologic testing and cardiac imaging for early detection of valvular damage. This diagnosis should be considered in Tunisia due to the endemicity of BE.

## Informed consent

Verbal consent was obtained from the patient.

## Funding

This work did not receive any funding.

## Acknowledgements

Dr. Olfa Gargouri, Dr. Imed Frikha

## Authors' contributions

Oussema Haddar: design of the case report, diagnostic and therapeutic management of the patient, drafting, revision and validation of the typescript.

Rania Ammar: diagnostic and therapeutic management of the patient, writing, revision and validation of the typescript.

Mabrouk Bahloul: drafting, revision and validation of the typescript.

Chokri ben Hamida: drafting, revision and validation of the typescript.

## Conflicts of interest

The authors declare that they have no competing interests.

**Auteurs et autrice / Authors**

Oussema HADDAR (1,3, Haddaroussama13@gmail.com), Rania AMMAR\* (2,3), Mabrouk BAHLOUL (2,3, bahloulmab@gmail.com), Chokri BEN HAMIDA (2,3, chokribenhamida@yahoo.fr)

1. Service de cardiologie, Centre hospitalier universitaire Hédi Chaker de Sfax, Tunisie

2. Service de réanimation médicale du Centre hospitalier universitaire Habib Bourguiba de Sfax, Tunisie

3. Université de Sfax, Tunisie

Autrice correspondante : rania.ammazayani@gmail.com

**Références / References**

1. Alfakheh S, Alghanem RF, Bin Obaid S, Alsawayhib A, Al Kawabab G, Abanamy R, Bosaeed M. Clinical characteristics and outcome of Brucella Endocarditis: A Case series. *Infect Drug Resist.* 2024 Oct 29;17:4733-4740. doi: 10.2147/IDR.S485537.

2. Bouattour Y, Ichrak M, Med Vall H, Frikha F, Snoussi M, Sameh M, Bahloul Z. La brucellose : une zoonose toujours d'actualité. *Rev Méd Int.* 2023;44:A219. doi: 10.1016/j.revmed.2023.04.171.

3. Delgado V, Ajmone Marsan N, de Waha S, Bonaros N, Brida M, Burri H, Caselli S, Doenst T, Ederhy S, Erba PA, Foldager D, Fosbøl EL, Kovac J, Mestres CA, Miller OI, Miro JM, Pazdernik M, Pizzi MN, Quintana E, Rasmussen TB, Ristić AD, Rodés-Cabau J, Sionis A, Zühlke LJ, Borger MA; ESC Scientific Document Group. 2023 ESC Guidelines for the management of endocarditis. *Eur Heart J.* 2023 Oct 14;44(39):3948-4042. doi: 10.1093/eurheartj/ehad193. Erratum in: *Eur Heart J.* 2023 Dec 1;44(45):4780. doi: 10.1093/eurheartj/ehad625. Erratum in: *Eur Heart J.* 2024 Jan 1;45(1):56. doi: 10.1093/eurheartj/ehad776. Erratum in: *Eur Heart J.* 2025 Jan 18;ehae877. doi: 10.1093/eurheartj/ehae877.

4. Ephrem CG, Matar MJ, Chalhoub GC, Greige WG. Brucella endocarditis: diagnostic challenges. *J Infect Dev Ctries.* 2018 Feb 22;12(2.1):25S. doi: 10.3855/jidc.10186.

5. Hannachi H, Maazaoui L, Dhaouadi D, Balhi S, Najjar N, Mrabet A. La surveillance épidémiologique de la brucellose en Tunisie (1995-2017). *Rev Tun Infectiol.* 2019;13(Suppl. 1):9.

6. Kamde SP, Anjankar A. Pathogenesis, diagnosis, antimicrobial therapy, and management of infective endocarditis, and its complications. *Cureus.* 2022 Sep 15;14(9):e29182. doi: 10.7759/cureus.29182.

7. Kong WKF, Salsano A, Giacobbe DR, Popescu BA, Laroche C, Duval X, Schueler R, Moreo A, Colonna P, Piper C, Calvo-Iglesias F, Badano LP, Srdanovic I, Boutoille D, Huttin O, Stöhr E, Timóteo AT, Vaskelyte JJ, Sadeqpour A, Tornos P, Abid L, Poh KK, Habib G, Lancellotti P; The EURO-ENDO Investigators. Outcomes of culture-negative vs. culture-positive infective endocarditis: the ESC-EORP EURO-ENDO registry. *Eur Heart J.* 2022 Aug 1;43(29):2770-2780. doi: 10.1093/eurheartj/ehac307. Erratum in: *Eur Heart J.* 2023 Jun 1;44(21):1909. doi: 10.1093/eurheartj/ehad222.

8. Kulkarni SK, Bhairappa S, Rangan K, P B. A tale of four valves: outcome of Brucella endocarditis: a case series. *Eur Heart J Case Rep.* 2019 Jun 1;3(2):ytz035. doi: 10.1093/ehjcr/ytz035.

9. Li X, Wang T, Wang Y, Xie S, Tan W, Li P. Short- and long-term follow-up outcomes of patients with Brucella endocarditis: a systematic review of 207 Brucella endocarditis cases. *Bioengineered.* 2021 Dec;12(1):5162-5172. doi: 10.1080/21655979.2021.1962683.

10. Morpeth S, Murdoch D, Cabell CH, Karchmer AW, Pappas P, Levine D, Nacinovich F, Tattevin P, Fernández-Hidalgo N, Dickerman S, Bouza E, del Río A, Lejko-Zupanc T, de Oliveira Ramos A, Larussi D, Klein J, Chirouze C, Bedimo R, Corey GR, Fowler VG Jr; International Collaboration on Endocarditis Prospective Cohort Study (ICE-PCS) Investigators. Non-HACEK gram-negative bacillus endocarditis. *Ann Intern Med.* 2007 Dec 18;147(12):829-35. doi: 10.7326/0003-4819-147-12-200712180-00002.

11. Narimisa N, Razavi S, Khoshbayan A, Masjedjan Jazi F. Prevalence of Brucella endocarditis: A systematic review and meta-analysis. *Health Sci Rep.* 2023 May 25;6(5):e1301. doi: 10.1002/hsr2.1301.

12. Reguera JM, Alarcón A, Miralles F, Pachón J, Juárez C, Colmenero JD. Brucella endocarditis: clinical, diagnostic, and therapeutic approach. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 2003 Nov;22(11):647-50. doi: 10.1007/s10096-003-1026-z.

13. Taamallah K, Hammami F, Gharsallah H, Koubaa M, Ben Jemaa M, Fehri W. Brucella Prosthetic Valve Endocarditis: A Systematic Review. *J Saudi Heart Assoc.* 2021 Aug 9;33(3):198-212. doi: 10.37616/2212-5043.1257.