

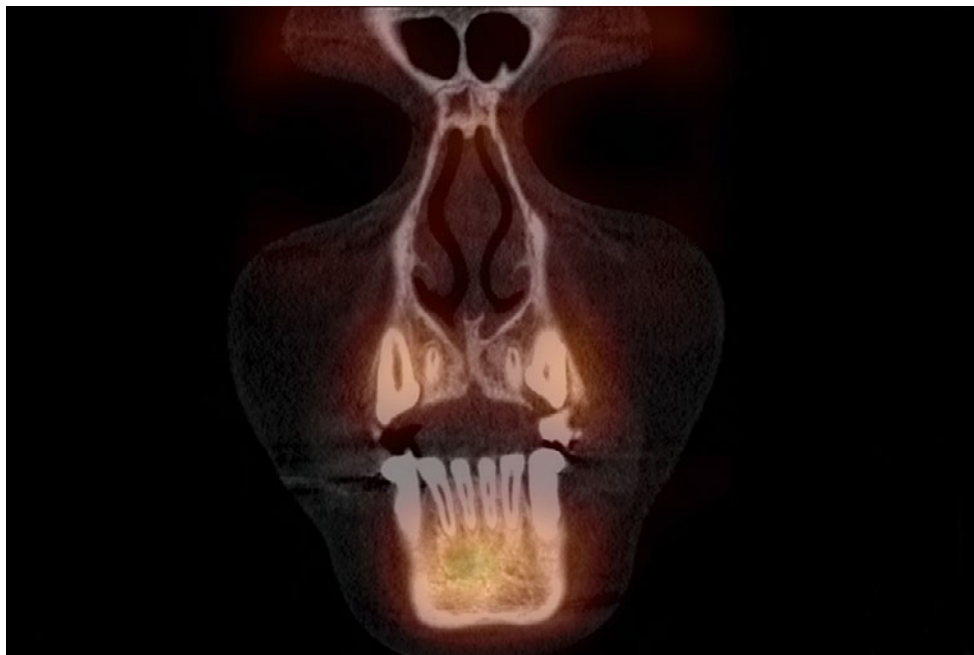
BEAT SCHERRER
ANDREA DELLA CHIESA
ELZBIETA POLSKA
JOHANNES J. KUTTEN-
BERGER

Clinique de chirurgie buccale
 et maxillo-faciale/chirurgie
 orale, Hôpital cantonal
 de Lucerne

CORRESPONDANCE

Dr. med. dent. Beat Scherrer
 Klinik für Mund-, Kiefer-
 und Gesichtschirurgie/
 Orale Chirurgie
 Luzerner Kantonsspital
 6000 Luzern 16
 Tél. 041 205 45 68
 Fax 041 205 45 75
 E-mail: beatscherrer
 @yahoo.com

Traduction: Jacques Rossier
 et Thomas Vauthier



Ostéomyélite chronique primaire de la mandibule avec exacerbation aiguë

Présentation d'un cas pédiatrique

MOTS-CLÉS

Ostéomyélite, ostéite, scintigraphie,
 SPECT/CT (scintigraphie osseuse combinée
 au scanner), oxygénothérapie hyperbare

Image en haut: SPECT/CT initiale

RÉSUMÉ

Les inflammations osseuses sont généralement consécutives à une infection de l'os par des germes pathogènes, ou plus rarement, elles peuvent être abactériennes, provoquées par exemple par des contraintes (ou stimuli) physiques. L'ostéomyélite chronique primaire de la mandibule est une inflammation osseuse sans étiologie clairement définie et sans phase aiguë préliminaire. Les symptômes se manifestent périodiquement, et les épisodes symptomatiques, d'intensité variable, peuvent durer de quelques jours à plusieurs semaines. Les patients peuvent présenter des douleurs, une tuméfaction, un trismus, une lymphadénite localisée et des troubles de la sensibilité. La mise en évidence fiable d'une ostéomyélite est basée notamment

sur la scintigraphie osseuse par radionucléides. Le traitement comprend l'antibiothérapie prolongée à hautes doses, l'administration d'oxygène hyperbare ainsi que des mesures chirurgicales pouvant inclure un débridement, une décortication ou encore la résection des zones atteintes. Récemment, quelques publications ont fait état de résultats positifs à moyen terme sous traitement par bisphosphonates. Nous rapportons ici le cas d'un garçon de 10 ans présentant une ostéomyélite chronique primaire de la mandibule. Les caractéristiques cliniques et radiologiques sont présentées, ainsi que le suivi; les mesures diagnostiques et thérapeutiques sont documentées et discutées sur la base de la littérature actuelle.

Introduction

C'est en 1893 que le chirurgien suisse Carl Garré a décrit pour la première fois le cas d'une ostéomyélite aiguë localisée dans le tibia. En 1955, PELL ET COLL. ont décrit un cas analogue dans la mandibule. Au niveau des mâchoires, la mandibule est atteinte nettement plus souvent que le maxillaire (ADEKEYE & CORNAH 1985). La localisation préférentielle dans le maxillaire ne s'observe que chez le nourrisson et le petit enfant. L'ostéomyélite est une affection qui peut survenir à tout âge (EYRICH ET COLL. 2003; SCHULZ ET COLL. 2010). Différentes classifications ont été établies sur la base des caractéristiques cliniques, anatomo-pathologiques, radiologiques, étiologiques et pathogéniques de la maladie (EYRICH ET COLL. 2003; SCHULZ ET COLL. 2010). Cette diversité entraîne souvent une certaine confusion et complique l'évaluation des études comparatives (BALTENSPERGER 2008; THEOLOGIE-LYGIDAKIS 2010). La classification de Zurich présente un ordre hiérarchique des critères de classification relatifs à l'ostéomyélite dans la région des maxillaires (BALTENSPERGER & EYRICH 2009). L'inflammation osseuse aiguë est souvent associée à une fonte purulente du tissu osseux, et reste initialement limitée à l'os. En cas d'expansion, le processus pathologique peut se propager au périoste et aux tissus mous adjacents. Une affection inflammatoire chronique n'est pas toujours précédée d'une phase aiguë ou subaiguë. En l'absence de ces antécédents, il s'agit alors d'une inflammation chronique primaire. Lorsqu'une ostéomyélite est caractérisée par des symptômes persistants (pendant plus de 4 semaines) précédés d'une phase aiguë, on parle d'ostéomyélite chronique secondaire (BALTENSPERGER 2013). Les inflammations osseuses aiguës et chroniques peuvent passer alternativement d'une forme à l'autre (SCHWENZER & EHRENFELD 2009). L'ostéomyélite chronique sclérosante, qui est en fait une entité radiologique (EYRICH ET COLL. 2000), est subdivisée en deux formes, diffuse et focale (SCHULZ ET COLL. 2010). De nombreux auteurs estiment que la forme sclérosante diffuse de l'ostéomyélite chronique est équivalente à l'ostéomyélite chronique primaire (BALTENSPERGER ET COLL. 2004; EYRICH ET COLL. 2003) ou «ostéomyélite sèche» (SCHWENZER & EHRENFELD 2009), et que ces termes sont synonymes. L'ostéomyélite chronique primaire de la mandibule n'est pas précédée d'une phase aiguë. Les symptômes surviennent périodiquement, par épisodes d'intensité variable d'une durée de quelques jours à plusieurs semaines. Les patients présentent des douleurs, une tuméfaction, un trismus, des adénopathies localisées et des troubles sensoriels. Typiquement, cette infection évolue sans collection purulente, fistulisation ou formation de séquestre osseux (BALTENSPERGER ET COLL. 2004; EYRICH ET COLL. 2003). Au niveau des maxillaires, une ostéomyélite peut être provoquée par une dent présentant une nécrose pulpaire ou une atteinte apicale, par une inflammation parodontale, une fracture infectée, etc. La dissémination hématogène à partir d'un foyer infectieux extraosseux est également possible, de même que la propagation d'une infection à partir d'une structure avoisinante, par exemple le sinus maxillaire. Les patients ayant subi une radiothérapie dans la région des maxillaires ou un traitement par certains médicaments, notamment les bisphosphonates ou le denosumab, ont un risque significativement accru d'ostéonécrose ou d'ostéomyélite de la mâchoire. Les inflammations osseuses bactériennes, provoquées par exemple par des stimuli physiques, sont moins fréquentes (SCHWENZER & EHRENFELD 2009). L'étiologie exacte de l'ostéomyélite chronique primaire reste cependant inconnue (BALTENSPERGER ET COLL. 2004; BEVIN ET COLL. 2008; THEOLOGIE-LYGIDAKIS ET COLL. 2011). Lors de suspicion d'ostéomyélite, l'examen radiologique de la structure osseuse est basé sur l'orthopantomogramme (OPT). Le scanner (CT) est utile pour mettre en évidence

les réactions périostées, les zones de sclérose, les processus ostéolytiques et l'os nécrosé (BOLOURI ET COLL. 2013). L'imagerie par résonance magnétique (IRM) permet de visualiser essentiellement les altérations inflammatoires de la moelle osseuse et des tissus mous adjacents. La scintigraphie osseuse par radionucléides est une méthode diagnostique fiable lors de suspicion d'ostéomyélite. Elle élargit les possibilités d'interprétation découlant de l'intensité, de la répartition spatiale et de la cinétique du métabolisme osseux. Les processus osseux pathologiques entraînent des modifications de l'irrigation osseuse et une accélération du métabolisme osseux, avec prédominance de l'ostéolyse ou de la néoformation osseuse. Dans une zone osseuse définie, l'incorporation quantitative du traceur radioactif est fonction de l'activité ostéoblastique locale. L'évaluation scintigraphique de l'activité biologique est basée sur l'intensité de l'incorporation (*uptake*). On obtient ainsi une représentation graphique des différences d'intensité du métabolisme osseux. Cependant, l'augmentation de l'activité ostéoblastique peut être liée à différents processus pathologiques, et les investigations radiologiques préliminaires restent donc indispensables (HARDT 1991). La tomographie d'émission monophotonique ou SPECT (de l'anglais: *Single Photon Emission Computed Tomography*) est une méthode diagnostique basée sur la production d'images en coupe selon le principe de la scintigraphie. On administre au patient un radionucléide émettant un rayonnement gamma après sa distribution dans le corps. Le rayonnement est enregistré par une ou plusieurs caméras en rotation autour du corps. Ce radionucléide permet d'obtenir des représentations graphiques de voies métaboliques et fonctionnelles dans le corps, et d'en suivre les variations. Le SPECT/CT permet de combiner les images scintigraphiques fonctionnelles (SPECT) aux images morphologiques (CT), réalisées au même moment et dans la même position au sein d'un même système informatique. Ce type d'imagerie constitue une méthode précise permettant d'évaluer les ostéomyélites de la mâchoire (BOLOURI ET COLL. 2013). A l'Hôpital cantonal de Lucerne (LUKS), cette technique radiologique est disponible depuis 2010. Les résultats des examens de laboratoires usuels sont généralement aspécifiques lors d'ostéomyélite chronique. Les examens sanguins montrent souvent une augmentation de la protéine C réactive (CRP) et du nombre de leucocytes (FLÜCKIGER & ZIMMERLI 2001). L'examen histopathologique et microbiologique d'une biopsie représente un élément important des investigations diagnostiques.

Le traitement de l'ostéomyélite chronique primaire est généralement multimodal. Il comprend une antibiothérapie à haute dose de durée suffisamment longue, l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) et le traitement chirurgical comprenant le débridement, la décortication ou encore la résection chirurgicale des zones de nécrose (MONTONEN ET COLL. 1993). Récemment, des succès thérapeutiques à moyen terme ont même été décrits sous traitement par les bisphosphonates (HINO ET COLL. 2005; MONTONEN ET COLL. 2001).

L'ostéomyélite chronique primaire de la mâchoire chez l'enfant ou l'adolescent fait l'objet d'un nombre restreint de publications. Quelques auteurs attirent l'attention sur les relations avec d'autres maladies et syndromes tels que le syndrome SAPHO (synovite, acné, pustulose, hyperostose, ostéite) ou l'ostéomyélite chronique multifocale récurrente (OCMR) (EYRICH ET COLL. 2003; WEIHE ET COLL. 2000).

Le présent travail rapporte le cas d'un garçon de 10 ans atteint d'une ostéomyélite chronique primaire localisée dans la mandibule. Les caractéristiques cliniques et radiologiques ainsi que le

traitement et le suivi sont présentés et discutés sur la base de la littérature disponible.

Présentation de cas

Un garçon de 10 ans a été adressé pour investigation, par son médecin-dentiste privé, à la Clinique de chirurgie buccale et maxillo-faciale/chirurgie orale de l'Hôpital cantonal de Lucerne. Antécédents médicaux: cet enfant se plaignait depuis environ une semaine de douleurs persistantes dans la région antérieure de la mâchoire inférieure, ainsi que de maux de tête diffus. Il était gêné depuis environ quatre jours par une tuméfaction vestibulaire douloureuse au niveau de la face antérieure de la mandibule. Un traitement orthodontique par un appareil amovible avait été initié trois mois auparavant; le patient a répondu par la négative aux questions relatives à une anamnèse de traumatisme dentaire ou d'intervention chirurgicale. Il était afebrile, en bon état de santé générale, et ne souffrait par ailleurs que d'une rhinite allergique saisonnière (rhume des foins).

L'examen clinique a mis en évidence une tuméfaction vestibulaire érythémateuse et douloureuse dans les régions 31 à 43; ces quatre dents étaient douloureuses à la percussion; la 31 et la 42 présentaient une mobilité de degré II, la 32 et la 41, de degré III. Le test de sensibilité à la neige carbonique était négatif pour les dents 41 à 43; il était positif pour les autres dents de la mâchoire inférieure. La région mésiale de la 43 présentait une profondeur de sondage augmentée (>5 mm); le sondage n'était pas accompagné par un écoulement purulent. L'hygiène bucco-dentaire du patient était bonne, les dents étaient sans caries.

Les radiographies apicales des dents isolées réalisées par le médecin-dentiste traitant montraient une vaste radiotransparence périapicale diffuse dans les régions 31 à 43. L'OPT mettait en évidence une ostéolyse diffuse et mal délimitée dans cette région, mais l'évaluabilité radiologique était fortement compromise par le flou de l'image dans la région antérieure. Pour obtenir des précisions supplémentaires, un CT de la mandibule a été réalisé. Il a montré une vaste ostéolyse périapicale de 11 mm de diamètre dans les régions 41 et 42; la lamelle interne de l'alvéole 43 présentait également une petite zone de destruction, et la corticale était légèrement amincie aussi bien en direction du menton qu'en direction linguale, avec une légère réaction périostée (fig. 1a). L'anamnèse de l'affection actuelle ainsi que les résultats des examens cliniques et radiologiques ont conduit au diagnostic de suspicion d'ostéomyélite. Pour confirmer le diagnostic, une scintigraphie a été réalisée (scintigraphie osseuse deux phases avec 545 MBq, 99mTc-DPD, Teceos), ainsi qu'un examen SPECT du squelette facial. En corrélation avec l'ostéolyse mise en évidence par le CT initial, il est apparu que l'accumulation du radionucléide était nettement augmentée aussi bien au cours de la phase initiale que de la phase tardive au niveau de la partie médiane antérieure et paramédiane droite de la mandibule (fig. 1b). Il n'y avait pas d'accumulation pathologique dans le maxillaire supérieur. Dans le reste du squelette, la distribution du radionucléide était normale et il n'y avait aucun signe d'autres foyers pathologiques.

À la suite de l'examen initial, les dents mobiles ont été stabilisées par une attelle de contention en titane dans les régions 34 à 44, et un frottis a été réalisé à partir de la poche de la 43. La culture de ce frottis au laboratoire central de l'Hôpital cantonal de Lucerne a mis en évidence des leucocytes assez nombreux compatibles avec une sécrétion purulente, ainsi que des bâtonnets et des coques gram-positifs et des bâtonnets gram-négatifs en assez grand nombre. L'identification bactérienne a montré

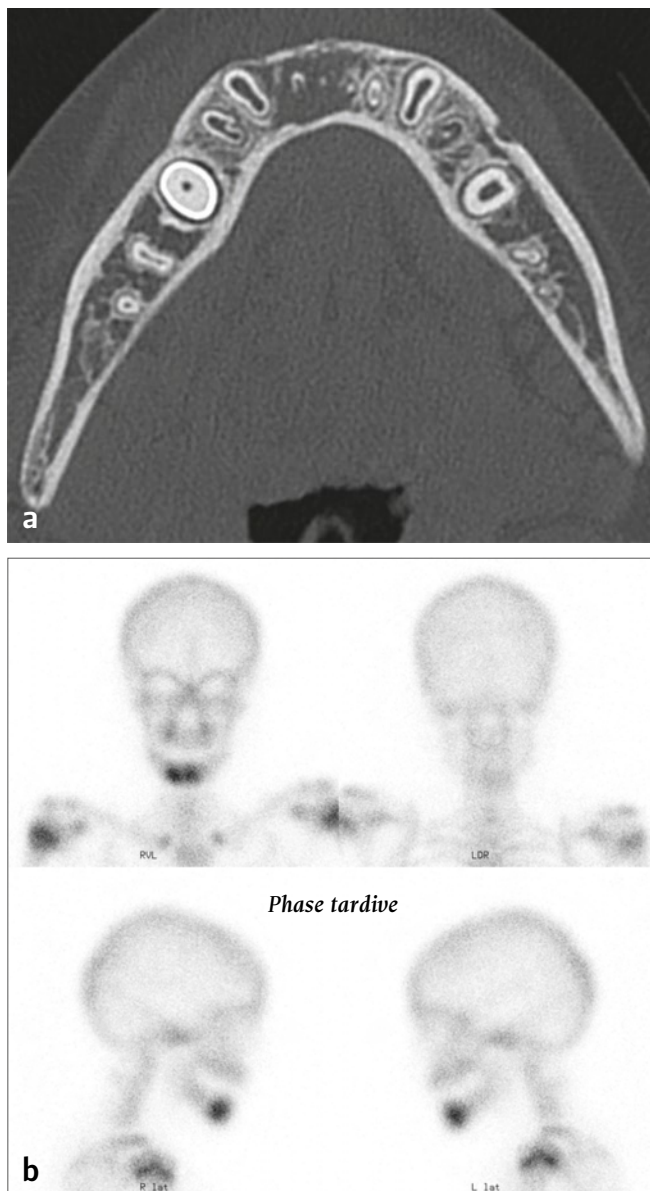


Fig. 1 Observations radiologiques au moment du diagnostic:

- Ostéolyse mal délimitée dans la région antérieure de la mandibule, avec amincissement et en partie érosion de l'os cortical vestibulaire et linguale (CT natif, couche axiale).
- Forte augmentation de l'activité dans la région antérieure de la mandibule (scintigraphie osseuse, phase tardive).

une croissance abondante d'une flore mixte anaérobie et de streptocoques viridans, une croissance soutenue de différentes espèces de *Neisseria* et une faible croissance de staphylocoques à coagulase négative.

Après discussion interdisciplinaire avec le radiologue et l'infectiologue, une antibiothérapie empirique par amoxicilline/acide clavulanique devait être initiée par voie intraveineuse, avec ajustement ultérieur éventuel du traitement après identification des germes en cause. Les parents s'étant opposés à ce traitement de deux semaines en milieu hospitalier, un traitement ambulatoire par Augmentin® (amoxicilline et acide clavulanique) 3 × 625 mg/jour per os a été initié. Après une péjoration aiguë de l'état de santé de leur enfant, les parents ont accepté l'hospitalisation. Une tuméfaction sous-mentonnière était apparue entre-temps, et les ganglions lymphatiques sous-maxillaires étaient nettement agrandis des deux côtés. Le taux de CRP était de

6 mg/l. L'antibiothérapie intraveineuse initiale prévue a été initiée avec 3 × 2,2 g/jour d'Augmentin®. Comme traitement d'appoint, une oxygénothérapie hyperbare (OHB) a été initiée au cours du 7^e jour d'hospitalisation, avec cinq plongées d'une heure par semaine. Sur le plan clinique, il en est résulté une régression rapide de la symptomatologie inflammatoire. Après douze jours d'hospitalisation, le petit patient a pu quitter l'hôpital en bon état de santé général. L'antibiothérapie a été modifiée par l'inféctiologue, avec passage à la clindamycine 3 × 350 mg/jour per os pour les 12 semaines suivantes. L'OHB devait être poursuivie à la même fréquence. Un contrôle clinique hebdomadaire a été réalisé pendant le mois suivant. Au cours de l'évolution ultérieure, l'apparition d'efflorescences cutanées a suggéré une hypersensibilité à la clindamycine, qui a motivé la reprise du traitement initial par Augmentin®. Les plongées régulières et fréquentes semblaient provoquer des paresthésies au niveau des pieds, raison pour laquelle la fréquence a été réduite à deux fois par semaine. L'évolution clinique ultérieure a été caractérisée par la normalisation complète de la muqueuse intra-orale, sans signes d'inflammation et sans douleurs à la pression et à la percussion des dents antérieures mandibulaires. Le traitement conservateur présenté a été poursuivi avec des contrôles mensuels. Au bout de douze semaines, la mère du patient a rapporté une forte diarrhée et des vomissements, de sorte que le traitement antibiotique a été interrompu. Un contrôle radiologique (scintigraphie osseuse deux phases avec 572 MBq, 99mTc-DPD, SPECT-CT des os du visage) après trois mois de traitement antibiotique et d'OHB a montré une amélioration indubitable de la situation clinique avec réduction nette de l'activité scintigraphique et de l'ostéolyse (fig. 2a). L'attelle de contention en titane a été remplacée par une gouttière thermoformée de contention.

En raison d'une altération de l'état de santé avec des nausées matinales d'intensité croissantes, surtout après l'oxygénothérapie, l'OHB a été interrompue au bout de quatre mois.

Lors du contrôle à cinq mois, les dents antérieures mandibulaires ne présentaient plus qu'une mobilité minime et le patient

était cliniquement asymptomatique. Le test à la neige carbonique était négatif pour la dent 42. La croissance radiculaire n'étant pas encore achevée, il fallait encore éviter une intervention endodontique.

Un nouveau contrôle radiologique (scintigraphie osseuse deux phases et SPECT/CT de la mâchoire avec 577 MBq, 99mTc, Teceos) a été réalisé 13 mois après le diagnostic initial. Par rapport à l'année précédente, une nouvelle amélioration a été constatée avec une forte diminution de l'activité scintigraphique et une régression de la taille des zones d'ostéolyse dans les régions mandibulaires 41 et 42. Cliniquement, la mobilité dentaire anormale avait disparu. Dans l'intervalle, le patient avait subi un traumatisme dentaire, de sorte qu'un traitement de racine de la dent 42 a dû être effectué. La mandibule antérieure était sans particularité à l'examen clinique, sans douleurs à la pression et à la percussion. Le contrôle clinique réalisé six mois plus tard était également sans particularité.

L'évaluation radiologique réalisée deux ans après le diagnostic initial (scintigraphie osseuse deux phases, SPECT-CT de la mâchoire [617 MBq, 99mTc-DPD] et SPECT-CT du crâne) ne présentait aucun signe d'ostéomyélite active de la mandibule. La taille de l'ostéolyse décrite initialement avait encore régressé, et le statut actuel pouvait être évalué en tant que lésion résiduelle après la guérison (fig. 2b). Lors de l'examen clinique, la mobilité des dents 33 à 43 était physiologique, la dent 42 avait été traitée par endodontie et le patient se portait bien. Le traitement orthodontique initialement prévu a pu être repris.

Six mois plus tard, le contrôle radiographique final (scintigraphie osseuse deux phases avec 549 MBq, 99mTc-DPD [Teceos®], SPECT-CT des os du visage) a été réalisé en raison d'une suspicion de mastoïdite aiguë. Cet examen a confirmé la guérison scintigraphique complète de l'ostéomyélite dans la région médiane de la mandibule. Il n'a pas été constaté d'autres éléments pathologiques. La guérison étant complète, le suivi de ce patient a été considéré comme terminé deux ans et demi après le diagnostic dans notre service.

Discussion

L'ostéomyélite chronique primaire de la mâchoire est définie dans la classification de Zurich (BALTENSBERGER & EYRICH 2009) en tant que maladie inflammatoire rare d'étiologie indéterminée. Il s'agit d'une inflammation osseuse chronique non purulente de la mâchoire, caractérisée également par l'absence de fistulisation et de séquestration osseuse. C'est ce qui la distingue clairement, dans la plupart des cas, de l'ostéomyélite aiguë ou chronique secondaire. Il n'y a pas de phase aiguë manifeste ou d'événement déclencheur spécifique comme un traumatisme ou une intervention chirurgicale antérieure (BALTENSBERGER & EYRICH 2009).

Dans le cas que nous rapportons, le patient ne présentait aucune cause manifeste d'ostéomyélite, de sorte que l'étiologie reste indéterminée. BALTENSBERGER & EYRICH (2009) divisent la population de patients atteints d'ostéomyélite chronique primaire en deux groupes d'âge: avant l'âge de 20 ans – à début précoce –, et après l'âge de 20 ans, c'est-à-dire à début à l'âge adulte (BALTENSBERGER & EYRICH 2009). Dans la littérature, on ne trouve que quelques cas faisant partie de la première catégorie, c'est-à-dire à début précoce (ou «ostéomyélite chronique juvénile»). Théoriquement, une ostéomyélite chronique primaire peut coïncider avec une ostéomyélite chronique secondaire lorsqu'une «surinfection bactérienne» affecte la région osseuse impliquée. Dans la littérature, aucun cas de ce genre n'a été publié à ce jour (BALTENSBERGER & EYRICH 2009). Le cas que nous présentons peut correspondre

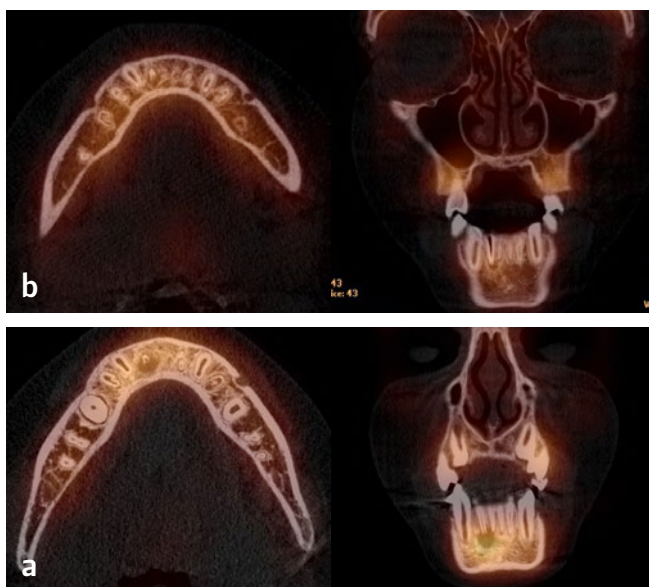


Fig. 2 SPECT/CT: suivi (à gauche coupes axiales, à droite coupes coronales [frontales])

- a) Contrôle après trois mois de traitement: régression nette de l'ostéolyse et de l'activité scintigraphique
- b) Contrôle deux ans après le diagnostic initial: ostéolyse résiduelle dans la région 42, aucune augmentation de l'activité scintigraphique

approximativement à une telle coïncidence, car le statut radiologique initial a dû se développer asymptomatiquement pendant une longue période, et les douleurs apparues peut-être après l'infection de la poche parodontale peuvent correspondre à la transition vers l'événement aigu.

Chez l'enfant, le diagnostic différentiel comprend les tumeurs osseuses primaires telles que l'ostéosarcome, le chondrosarcome et le sarcome d'Ewing, qui doivent être exclus le cas échéant par une biopsie (FLÜCKIGER & ZIMMERLI 2001). Ces tumeurs malignes osseuses sont pratiquement impossibles à différencier radiologiquement de l'ostéomyélite chronique primaire accompagnée d'une réaction périostée importante.

La dysplasie fibreuse (ou syndrome de Jaffé-Lichtenstein), une affection non néoplasique mais d'aspect tumoral, fait également partie du diagnostic différentiel (EYRICH ET COLL. 2003). Survenant principalement chez l'adolescent, elle est localisée plus fréquemment dans le maxillaire que dans la mandibule. Typiquement, elle se manifeste par une tuméfaction osseuse indolore; l'image radiologique est caractérisée par des opacités radiologiques ou des structures osseuses mixtes radio-opaques et radiotransparentes. La transition entre la dysplasie fibreuse et l'os sain avoisinant n'est pas nettement délimitée (SCHULZ ET COLL. 2010). Dans un rapport de cas de dysplasie fibreuse, celle-ci n'a été correctement diagnostiquée qu'après l'exclusion d'une tumeur osseuse (CHANG ET COLL. 2002). La dysplasie cémento-osseuse périapicale non néoplasique, qui ressemble à une tumeur, apparaît en général simultanément dans plusieurs dents antérieures vitales de la mandibule, dont la maturation est caractérisée par des radio-opacités arrondies et nettement délimitées. Du point de vue du diagnostic différentiel, ces éléments la distinguent radiologiquement de l'ostéomyélite (BALTENSPERGER & EYRICH 2009; SCHULZ ET COLL. 2010).

Les énéostoses ou îlots corticaux sont cliniquement asymptomatiques; leur structure histologique est densément trabéculaire, sans aspect inflammatoire. Ces zones de sclérose peuvent être non seulement périapicales, elles peuvent aussi impliquer tout le processus alvéolaire. Le plus souvent, c'est la mâchoire inférieure qui est affectée; les examens radiologiques montrent des formes arrondies et en partie irrégulières, avec une densité osseuse hétérogène et des zones marginales qui peuvent être floues ou au contraire bien délimitées (BALTENSPERGER & EYRICH 2009; SCHULZ ET COLL. 2010). L'ostéome (périphérique ou périosté: exostose ou ostéochondrome; central ou endosté: énéostose) est une tumeur bénigne à croissance lente avec une structure dense et uniforme comparable à la corticale, dont l'image radiologique est bien délimitée par rapport à l'os spongieux (BALTENSPERGER & EYRICH 2009; SCHULZ ET COLL. 2010). Le fibrome ossifiant est localisé presque exclusivement dans la région postérieure de la mâchoire; son image radiologique est nettement délimitée par rapport à l'os sain adjacent et comprend des zones ostéolytiques et des zones sclérosées.

L'image radiologique de ces trois affections peut imiter la réaction périostée qui peut survenir lors d'ostéomyélite chronique primaire (BALTENSPERGER & EYRICH 2009; SCHULZ ET COLL. 2010).

A un âge avancé, la maladie de Paget, une maladie chronique lentement progressive du système squelettique caractérisée par un remaniement rapide de l'os avec des déformations consécutives, fait également partie du diagnostic différentiel lorsque la mâchoire est impliquée.

L'ostéopétrose, une maladie caractérisée par une augmentation de la masse osseuse, mais avec diminution de la stabilité de l'os et survenue fréquente de fractures, montre en cas

d'atteinte de la mâchoire des scléroses radiologiques massives, similaires à ce que l'on peut observer lors d'ostéomyélite chronique primaire ou secondaire.

L'ostéomyélite chronique primaire est située typiquement dans la région postérieure de la mandibule, alors que l'atteinte du maxillaire est très rare. La localisation dans la région antérieure de la mandibule, comme dans notre cas, est plutôt inhabituelle.

Au début, notre patient ne présentait pas les symptômes classiques (douleurs, tuméfaction, trismus, lymphadénite localisée, troubles sensoriels) que l'on peut trouver dans la littérature (BALTENSPERGER ET COLL. 2004; BEVIN ET COL. 2008; EYRICH ET COLL. 2003; SCHWENZER & EHRENFELD 2009). L'affection actuelle était caractérisée initialement par une tuméfaction locale et des douleurs, et plus tard par une lymphadénite, alors que le patient était par ailleurs en bon état général. Les céphalées diffuses pouvaient s'expliquer, par exemple, par l'irradiation (en tant que para fonction) de douleurs myofasciales issues de l'articulation temporo-mandibulaire, comme le mentionnent BEVIN ET COLL. (2008). Une posture de protection en raison d'une douleur locale lors de la mastication peut éveiller temporairement la suspicion d'une myalgie des muscles masticatoires. Mais une dysfonction des muscles de la mastication n'a pas été diagnostiquée chez notre patient.

Les examens radiologiques classiques (en l'occurrence radiographies périapicales et OPT) ne permettent qu'un diagnostic de suspicion d'ostéomyélite. Pour poser le diagnostic avec un degré de certitude raisonnable, il est nécessaire de recourir à des examens spécialisés, en particulier le SPECT/CT.

Si l'on ne dispose que d'une scintigraphie osseuse, il n'est pas possible de différencier les diverses formes d'ostéomyélite. Cela n'est possible que si l'on dispose de la corrélation avec l'image morphologique. Cet examen combiné permet la détection précoce de l'ostéomyélite. Il est possible de surveiller l'évolution de l'ostéomyélite en fonction de l'augmentation ou de la diminution d'activité. La progression ou la régression d'activité au cours du traitement antibiotique permet de déterminer à temps si le traitement est efficace ou s'il est nécessaire de recourir éventuellement à des mesures chirurgicales (HARDT 1991). En outre, la guérison définitive d'un processus infectieux localisé dans le tissu osseux peut être confirmée, comme dans notre cas. Une publication récente a confirmé l'efficacité de ces techniques diagnostiques lors de suspicion d'ostéomyélite (BOLOURI ET COLL. 2013). Dans le cas présent, en raison des données cliniques et radiologiques relativement claires, nous avons renoncé à confirmer le diagnostic par une biopsie osseuse.

Les paramètres de laboratoire usuels, tels que la valeur de la CRP, ne sont pas vraiment pertinents lors de suspicion d'ostéomyélite chronique; dans notre cas, la valeur de la CRP n'était que légèrement augmentée. Ce qui est confirmé également par EYRICH ET COLL. (2003), qui ont investigué onze cas d'ostéomyélite chronique primaire chez l'enfant et l'adolescent, traités à la Clinique de chirurgie maxillo-faciale de l'Hôpital universitaire de Zurich entre 1970 et 2000. A ce jour, il n'existe pas de paramètres sanguins permettant de diagnostiquer clairement et sans équivoque une inflammation osseuse (SCHWENZER & EHRENFELD 2009).

Chez notre patient, l'examen microbiologique (d'un frottis, et pas de la lésion osseuse elle-même) après culture a montré au microscope une flore buccale normale, mais avec des leucocytes, c'est-à-dire un exsudat purulent. Cette combinaison parle pour la forme mixte susmentionnée, c'est-à-dire pour

une ostéomyélite chronique primaire avec exacerbation aiguë par une infection opportuniste. Dans les affections chroniques du tissu osseux, le nombre de bactéries est souvent faible, et chez les patients traités par des antibiotiques, la mise en évidence fiable des bactéries n'est guère possible. Il peut même arriver, comme dans le cas présent, que les cultures ne mettent en évidence qu'une flore buccale normale, dont la signification causale est discutable dans le développement d'une ostéomyélite (BEVIN ET COLL. 2008; SCHWENZER & EHRENFELD 2009).

La détermination spécifique des germes et de leurs profils de résistance est nécessaire pour pouvoir initier une antibiothérapie ciblée. Lors d'ostéomyélite aiguë avec des symptômes importants, il n'est pas possible d'attendre les résultats de la bactériologie. On administre tout d'abord un traitement antibiotique empirique jusqu'à l'obtention des résultats des cultures microbiologiques, qui permettent alors, si nécessaire, de passer à une antibiothérapie ciblée. Cela peut être réalisé avec tous les antibiotiques efficaces contre le spectre des bactéries de la cavité buccale, tout en présentant une bonne pénétration osseuse. La combinaison d'une pénicilline à large spectre (amoxicilline) avec un inhibiteur de la pénicillinase (acide clavulanique) est actuellement le traitement empirique de premier choix lors d'ostéomyélite de la mâchoire. Alternativement, il est possible d'utiliser la clindamycine (AL-NAWAS 2013; SCHWENZER & EHRENFELD 2009). En plus de l'antibiothérapie susmentionnée, l'oxygénothérapie hyperbare (OHB) est souvent utilisée en tant que traitement adjuvant. Les patients respirent de l'oxygène pur administré à une pression supérieure à la pression atmosphérique. L'oxygène inhalé dans ces conditions hyperbares entraîne une augmentation de la pression partielle d'O₂ dans le plasma puis, notamment, dans le tissu osseux. Dans la littérature, différents effets sont attribués à ce traitement: augmentation de la capacité de phagocytose des neutrophiles, induction de l'angiogenèse, intensification des effets de certains antibiotiques, effet bactériostatique ou bactéricide, stimulation de la synthèse du collagène et donc de la synthèse de moelle osseuse (HANDSCHEL ET COLL. 2007; LENTRODT ET COLL. 2007). Dans les tissus dont l'irrigation sanguine est faible, on améliore ainsi l'apport en oxygène, ce qui augmente l'activité des cellules impliquées dans les défenses immunitaires de l'organisme et accélère les processus de réparation (SCHWENZER & EHRENFELD 2009). HANDSCHEL ET COLL. (2007) ont présenté une étude avec des patients atteints d'ostéomyélite de la mandibule traitée par oxygénothérapie hyperbare. Dans trois groupes définis de patients – manifestation initiale non traitée, évolution peu sévère avec des récurrences, évolution sévère avec récides – l'OHB a permis d'obtenir chez de nombreux patients la suppression des symptômes et des récides. En moyenne, pour obtenir un résultat probant en combinaison avec un traitement antibiotique, plus de 40 séances d'OHB sont nécessaires (HANDSCHEL ET COLL. 2007; LENTRODT ET COLL. 2007).

La corticothérapie peut être utilisée seulement dans la forme chronique sclérosante diffuse d'une inflammation osseuse sans participation bactérienne; en cas de participation bactérienne, elle est contre-indiquée en raison de l'affaiblissement des défenses immunitaires locales que ce traitement implique (SCHWENZER & EHRENFELD 2009). Dans notre cas, une colonisation aiguë était suspectée et un traitement de ce type n'était donc pas une option envisageable.

Enfin, il reste l'option invasive de la résection chirurgicale. Les zones osseuses présentant une atteinte inflammatoire sont réséquées et curetées jusqu'au tissu osseux présentant une irri-

gation sanguine manifeste. Lors d'atteinte chronique et chronique récidivante étendue, une décortication est réalisée, c'est-à-dire une résection de la corticale des zones affectées de la mâchoire. Les zones osseuses dont l'irrigation sanguine et les défenses immunitaires sont réduites – ainsi que le potentiel de guérison – peuvent entrer davantage en contact avec les tissus mous après ablation de la barrière corticale, de façon à ce qu'une revascularisation adéquate du tissu osseux soit possible (SCHWENZER & EHRENFELD 2009). Selon les données de la littérature, cette thérapie permet d'obtenir de bons résultats. Ainsi, MONTONEN ET COLL. (2001) rapportent un taux de succès de près de 50% après traitement chirurgical de 41 patients sur une période de 21 ans (MONTONEN ET COLL. 2001). EYRICH ET COLL. (2003) ont publié des résultats similaires dans une série de onze cas d'ostéomyélite chronique primaire de l'enfant et de l'adolescent. Il semble bien que les traitements combinés permettent eux aussi d'obtenir de bons résultats. Mais il est évident que le traitement chirurgical représente l'option ultime, notamment chez l'enfant et l'adolescent, en raison de la possibilité de troubles de la croissance (BALTENSCHER & EYRICH 2009, HANDSCHEL ET COLL. 2007, LENTRODT ET COLL. 2007, MONTONEN ET COLL. 1993).

Récemment, le traitement par les bisphosphonates a été décrit en tant qu'alternative dans le traitement conservateur de l'ostéomyélite chronique récurrente primaire. A court terme, une régression rapide de la symptomatologie douloureuse a été obtenue, parfois même quelques jours après la première perfusion, et après quelques mois, une régression des autres symptômes a été constatée (KUIJPERS ET COLL. 2011; MONTONEN ET COLL. 2001). Lorsque les traitements conservateurs restent inefficaces, HINO ET COLL. (2005) recommandent même les bisphosphonates en tant que nouvelle stratégie thérapeutique. Trois mois après le début du traitement par bisphosphonates, une réduction de l'accumulation des radionucléides a été mise en évidence lors de la scintigraphie (HINO ET COLL. 2005).

Conclusions

Chez les patients souffrant de douleurs d'origine peu claire, comme c'est le cas par exemple lors d'ostéomyélite chronique, l'anamnèse et les investigations cliniques ciblées ont une importance diagnostique essentielle. L'anamnèse des douleurs, les tests de sensibilité, la douleur à la percussion, la formation de poches parodontales et l'examen de la mobilité dentaire peuvent fournir les premiers indices d'une ostéomyélite. Les examens radiologiques conventionnels peuvent étayer le diagnostic de suspicion. Lors d'inflammation osseuse mal définie ou de suspicion d'ostéomyélite chronique, et en raison des différentes possibilités du diagnostic différentiel, le patient devrait être adressé rapidement à une clinique spécialisée. En milieu hospitalier, le diagnostic peut être confirmé par des examens radiologiques spécialisés (CT, IMR, SPECT/CT) et, le cas échéant, par une biopsie osseuse. Le traitement antibiotique doit être évité impérativement avant l'isolement des germes en cause par frottis ou biopsies (à moins qu'il s'agisse d'une ostéomyélite aiguë avec des symptômes importants, cf. *supra*).

Le traitement de l'ostéomyélite chronique primaire est complexe et peut s'étendre sur plusieurs mois ou années. L'antibiothérapie, l'oxygénothérapie hyperbare et éventuellement les mesures chirurgicales (décortication) sont au premier plan. Le rôle des nouveaux traitements, par exemple par les bisphosphonates, ne peut pas encore être évalué de façon définitive.