

**UNIVERSITE DE LILLE**  
**FACULTE DE CHIRURGIE DENTAIRE**

Année de soutenance : 2022

N°:

THESE POUR LE  
**DIPLOME D'ETAT DE DOCTEUR EN CHIRURGIE DENTAIRE**

Présentée et soutenue publiquement le 13 avril 2022

Par Marine MASUREL

Née le 29 Octobre 1997 à Lille – France

LE DIAGNOSTIC DES OSTÉITES DES MAXILLAIRES DANS LE CADRE DU  
SYNDROME SAPHO

**JURY**

Président :	Monsieur le Professeur Thomas COLARD
Assesseurs :	<u>Madame le Docteur Cécile OLEJNIK</u> Monsieur le Docteur Xavier COUTEL Monsieur le Docteur Maxime BEDEZ
Membre invité :	Madame le Docteur Marie-Hélène VIEILLARD



Président de l'Université	:	Pr. J-C. CAMART
Directrice Générale des Services de l'Université	:	M-D. SAVINA
Doyen UFR3S	:	Pr. D. LACROIX
Directrice des Services d'Appui UFR3S	:	G. PIERSON
Doyen de la faculté d'Odontologie – UFR3S	:	Pr. C. DELFOSSE
Responsable des Services	:	M. DROPSIT
Responsable de la Scolarité	:	G. DUPONT

## **PERSONNEL ENSEIGNANT DE LA FACULTE.**

### **PROFESSEURS DES UNIVERSITES :**

P. BEHIN	Prothèses
T. COLARD	Fonction-Dysfonction, Imagerie, Biomatériaux
C. DELFOSSE	Responsable du Département d'Odontologie Pédiatrique <b>Doyen de la faculté d'Odontologie – UFR3S</b>
E. DEVEAUX	Dentisterie Restauratrice Endodontie

## MAITRES DE CONFERENCES DES UNIVERSITES

K. AGOSSA	Parodontologie
T. BECAVIN	Dentisterie Restauratrice Endodontie
A. BLAIZOT	Prévention, Epidémiologie, Economie de la Santé, Odontologie Légale.
P. BOITELLE	Prothèses
<b>F. BOSCHIN</b>	Responsable du Département de <b>Parodontologie</b>
<b>E. BOCQUET</b>	Responsable du Département d' <b>Orthopédie Dento-Faciale</b>
<b>C. CATTEAU</b>	Responsable du Département de <b>Prévention, Epidémiologie, Economie de la Santé, Odontologie Légale.</b>
X. COUTEL	Biologie Orale
A. de BROUCKER	Fonction-Dysfonction, Imagerie, Biomatériaux
M. DEHURTEVENT	Prothèses
T. DELCAMBRE	Prothèses
F. DESCAMP	Prothèses
M. DUBAR	Parodontologie
A. GAMBIEZ	Dentisterie Restauratrice Endodontie
F. GRAUX	Prothèses
<b>P. HILDELBERT</b>	Responsable du Département de <b>Dentisterie Restauratrice Endodontie</b>
C. LEFEVRE	Prothèses
J.L. LEGER	Orthopédie Dento-Faciale
M. LINEZ	Dentisterie Restauratrice Endodontie
T. MARQUILLIER	Odontologie Pédiatrique
G. MAYER	Prothèses
<b>L. NAWROCKI</b>	Responsable du Département de <b>Chirurgie Orale</b> Chef du Service d'Odontologie A. Caumartin - CHRU Lille
<b>C. OLEJNIK</b>	Responsable du Département de <b>Biologie Orale</b>
W. PACQUET	Fonction-Dysfonction, Imagerie, Biomatériaux
P. ROCHER	Fonction-Dysfonction, Imagerie, Biomatériaux
L. ROBBERECHT	Dentisterie Restauratrice Endodontie
<b>M. SAVIGNAT</b>	Responsable du Département des <b>Fonction-Dysfonction, Imagerie, Biomatériaux</b>
T. TRENTESAUX	Odontologie Pédiatrique
<b>J. VANDOMME</b>	Responsable du Département de <b>Prothèses</b>

### ***Réglementation de présentation du mémoire de Thèse***

Par délibération en date du 29 octobre 1998, le Conseil de la Faculté de Chirurgie Dentaire de l'Université de Lille a décidé que les opinions émises dans le contenu et les dédicaces des mémoires soutenus devant jury doivent être considérées comme propres à leurs auteurs, et qu'ainsi aucune approbation, ni improbation ne leur est donnée.

# Table des matières

<b>1</b>	<b>Introduction</b> .....	<b>8</b>
<b>2</b>	<b>Objectifs</b> .....	<b>11</b>
<b>3</b>	<b>Matériels et méthodes</b> .....	<b>13</b>
3.1	Etude de conception .....	13
3.2	Recrutement des patients.....	13
3.3	Déclaration à la CNIL.....	13
3.4	Consentement .....	13
3.5	Critères d'inclusion .....	14
3.6	Critères d'exclusion .....	14
3.7	Données recueillies .....	14
<b>4</b>	<b>Résultats</b> .....	<b>16</b>
4.1	Flow-chart.....	16
4.2	Caractéristiques générales .....	18
4.3	Tableau clinique.....	21
4.4	Retentissements bucco-dentaires associés.....	24
4.5	Prise en charge thérapeutique.....	25
<b>5</b>	<b>Discussion</b> .....	<b>30</b>
5.1	Epidémiologie .....	30
5.2	Etiopathogénie.....	30
5.3	Orientation des patients.....	31
5.4	Symptomatologie .....	31
5.5	Evolution .....	33
5.6	Diagnostic.....	33
5.7	Traitements.....	37
5.8	Pour le Chirurgien-Dentiste .....	38
<b>6</b>	<b>Conclusion</b> .....	<b>40</b>
	<b>Références bibliographiques</b> .....	<b>42</b>
	<b>Annexes</b> .....	<b>46</b>
	Annexe 1 : formulaire de déclaration CNIL .....	46
	Annexe 2 : attestation de déclaration d'un traitement informatique pour la recherche DEC20-358 .....	48
	Annexe 3 : note d'information.....	49
	Annexe 4 : tableau d'extraction de données des 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille .....	52

## TABLE DES ABREVIATIONS

<b>AINS</b>	Anti-Inflammatoire Non Stéroïdien
<b>ATCD</b>	Antécédent
<b>BBS</b>	Bilan Biologique Sanguin
<b>CBCT</b>	<i>Cone Beam Computed Tomography</i>
<b>CHU</b>	Centre Hospitalier Universitaire
<b>CNIL</b>	Commission Nationale de l'Informatique et des Libertés
<b>CRP</b>	<i>C-Reactive Protéin</i>
<b>F</b>	Féminin
<b>IRM</b>	Imagerie par résonance magnétique
<b>IRO</b>	Inhibiteur de la Résorption Osseuse
<b>IV</b>	Intra-Veineuse
<b>M</b>	Masculin
<b>OCMR</b>	Ostéomyélite Chronique Multifocale Récidivante
<b>PA</b>	Paquet Année
<b>PEC</b>	Prise En Charge
<b>PPP</b>	Pustulose Palmoplantaire
<b>SADAM</b>	Syndrome Algo-Dysfonctionnel de l'Appareil Mandicateur
<b>SAPHO</b>	Synovite Acné Pustulose Hyperostose Ostéite
<b>TEP</b>	Tomographie par Emission de Positons
<b>TNF</b>	<i>Tumor Necrosis Factor</i>
<b>TTT</b>	Traitement
<b>VS</b>	Vitesse de Sédimentation

# 1 Introduction

Le syndrome SAPHO, acronyme de Synovite Acné Pustulose Hyperostose Ostéite, est une entité pathologique qui associe des signes cutanés, osseux et articulaires, et s'inscrit dans le groupe des spondylarthropathies (1).

Les premières descriptions cliniques du syndrome SAPHO n'englobaient pas l'ensemble des atteintes du tableau clinique actuel (1–3). Initialement, Windom a rapporté des cas associant des lésions cutanées, avec l'acné conglobata<sup>1</sup>, et des lésions musculo-squelettiques, l'arthrite, en 1961 (5). Par la suite, des lésions sterno-claviculaires associées à une pustulose palmoplantaire (PPP) sont décrits par Sasaki en 1967 (6). Un autre cas d'hyperostose sterno-claviculaire est rapporté cette fois en 1982 par Bookbinder (7). L'arthro-ostéite pustuleuse est un concept proposé en 1981 par Sonozaki dans une étude de 53 cas (8). C'est seulement en 1987 que le terme « syndrome SAPHO » est proposé par Chamot dans une étude de 85 patients (9). L'abréviation signifiait d'abord Syndrome Acné-Pustulose-Hyperostose-Ostéite avant d'être modifié en « Synovite-Acné-Pustulose-Hyperostose-Ostéite » par Kahn MF et Kahn MA en 1994 (10).

Ce syndrome est également décrit chez l'enfant, on parle d'ostéite chronique multifocale récurrente à la place de SAPHO (3,11,12). Il touche plus particulièrement les métaphyses des os longs et le tiers médial de la clavicule chez les enfants, et il est accompagné d'atteintes extra-osseuses. De plus en plus, les études montrent que l'OCMR appartiendrait au même spectre de maladies auto-inflammatoires multifactorielles à expression osseuse que le SAPHO, mais certaines spécificités semblent démontrer que l'OCMR ne serait pas qu'un simple SAPHO pédiatrique (13).

Ce syndrome est actuellement d'origine encore inconnue mais considéré comme une maladie auto-inflammatoire avec une dérégulation de l'immunité innée. Il est souvent intégré dans les spondylarthropathies. Son incidence est faible ou elle est du moins sous diagnostiquée, et fait donc partie des maladies rares décrites sur

---

<sup>1</sup> Elle correspond à la forme la plus grave d'acné vulgaire avec la formation d'abcès, de sinus de drainage, de fistulisations des comédons, de cicatrices chéloïdiennes et atrophiques, qui peuvent atteindre sévèrement le dos et le thorax, mais toucher également les bras, l'abdomen, les fesses et même le cuir chevelu (4).



Orphanet (14). Il y a peu d'études dessus, et pas de recommandation officielle concernant la stratégie thérapeutique.

Le syndrome SAPHO se caractérise par la présence simultanée ou non d'une partie ou de tous les symptômes suivants :

- la synovite : elle correspond à une inflammation de la membrane synoviale de l'articulation et touche le plus souvent les articulations sterno-claviculaires, costo-sternales, sacro-iliaques, les genoux et les poignets (10),
- l'acné : elle est observée sous forme d'acné vulgaris<sup>2</sup>, d'acné conglobata ou d'acné fulminans<sup>3</sup>,
- la pustulose (**Figure 1**) : il s'agit d'une pustulose palmoplantaire ou d'un psoriasis pustuleux avec une éruption inflammatoire, chronique et stérile de pustules, localisée sur la plante des pieds et/ou la paume des mains,
- l'hyperostose (**Figure 2**) : c'est un processus d'hyper-ossification spontané et pathologique (car non consécutif à un traumatisme) qui touche principalement le squelette axial,
- l'ostéite : elle correspond à une inflammation chronique de l'os aseptique, avec un fort remodelage osseux (2).

---

<sup>2</sup> Elle correspond à la formation sur le visage et le haut du tronc de comédons, de papules, de pustules, de nodules et/ou de kystes, due à l'obstruction et à l'inflammation des unités pilo-sébacées (4).

<sup>3</sup> Elle correspond à une acné conglobata aiguë, fébrile et ulcéralive, caractérisée par l'apparition soudaine d'abcès confluents conduisant à une nécrose hémorragique (4).



**Figure 1** : pustulose plantaire (15)



**Figure 2** : hyperostose caractérisée par un œdème de la région sterno-claviculaire (10)

Devant la rareté du syndrome SAPHO et du fait d'une atteinte potentielle des maxillaires, ce travail se propose d'illustrer au travers d'une étude clinique rétrospective observationnelle les caractéristiques des patients et les difficultés rencontrées lors de leur parcours diagnostique et thérapeutique.

## 2 Objectifs

Le syndrome SAPHO est une affection rare qui retentit sur le quotidien des patients, notamment lorsqu'il touche les maxillaires. Cependant, le chirurgien-dentiste qui intervient en première ligne n'est que très peu sensibilisé à ce type de maladie.

La problématique concerne d'une part la difficulté qui persiste pour diagnostiquer une ostéite primitive chronique, alors que le diagnostic des ostéites d'origine infectieuse est bien plus facile et rapide. Le traitement des ostéites infectieuses repose sur la correction de l'agent causal et l'antibiothérapie. Au contraire, les ostéites chroniques sont souvent rebelles aux traitements antibiotiques, chirurgicaux et à l'oxygénothérapie hyperbare (16). D'autre part, l'ostéite du syndrome SAPHO touche différents os mais l'atteinte des maxillaires reste rare. Ainsi, il est d'autant plus difficile pour le chirurgien-dentiste d'établir le diagnostic face à un tel tableau symptomatologique et à la méconnaissance de cette pathologie rare. Il semblerait donc que le parcours de ces patients soit compliqué, de l'orientation vers les spécialistes à la prise en charge adéquate.

L'objectif de ce travail est d'amener les chirurgiens-dentistes à plusieurs réflexions dans la prise en charge des patients et face à un potentiel syndrome SAPHO. Quelle attitude un chirurgien-dentiste doit-il adopter face à des douleurs non dentaires sans étiologie apparente sans tomber dans la spirale des interventions délétères pour le patient ? Comment un interrogatoire clinique approfondi peut-il amener à évoquer l'existence d'un syndrome clinique plus général qui permettra d'orienter le patient ? Quels sont les signes d'appel extra-osseux pouvant motiver une prise en charge multidisciplinaire et orienter le patient vers des confrères spécialistes en chirurgie orale, chirurgiens maxillo-faciaux, rhumatologues ou dermatologues notamment ? Comment déterminer la prise en charge optimale dont le patient pourra bénéficier pour soulager au mieux la symptomatologie ?

Dans le cadre de ce travail, nous avons donc réalisé une étude clinique rétrospective observationnelle portant sur la mise en place du diagnostic du syndrome SAPHO chez une groupe de 14 patients. A partir du suivi de ces patients souffrant de douleurs osseuses maxillaires pour laquelle le diagnostic d'ostéite des maxillaires dans le cadre d'un syndrome SAPHO a été retenu, le but de cette étude

est de décrire les caractéristiques de ces patients, mais également d'illustrer leur parcours diagnostique et les différentes solutions thérapeutiques proposées depuis la survenue des douleurs osseuses maxillaires.

## **3 Matériels et méthodes**

### **3.1 Etude de conception**

Il s'agit d'une étude rétrospective, monocentrique, observationnelle qui étudie le diagnostic d'une ostéite survenue dans le cadre du syndrome SAPHO. Les données cliniques et d'imagerie ont été recueillies dans le cadre du soin courant.

### **3.2 Recrutement des patients**

Les patients inclus sont les patients pris en charge dans la consultation pluridisciplinaire de suivi des patients présentant des pathologies osseuses des maxillaires. Il s'agit d'une consultation mise en place depuis juin 2005 associant un rhumatologue, un chirurgien maxillo-facial et un chirurgien-dentiste. Cette consultation spécialisée a été réalisée dans le service de Chirurgie Maxillo-Faciale et Stomatologie de l'Hôpital Roger Salengro du CHU du Lille. Au moment du recueil des éléments de l'étude, la consultation pluridisciplinaire de suivi était assurée par les Docteur Marie-Hélène VIEILLARD, Docteur Jean-Michel MAES, et Docteur Cécile OLEJNIK (ayant remplacé le Pr Guillaume PENEL).

Le recrutement des patients a été réalisé sur une période de 18 ans et 6 mois, se déroulant de juin 2005 à octobre 2021.

Les patients ont été adressés dans le service et sont suivis avec une périodicité fonction de la symptomatologie douloureuse tous les 3 à 6 mois en général.

### **3.3 Déclaration à la CNIL**

L'étude a nécessité un accord de la CNIL pour la protection des données des patients. La demande a été effectuée sur l'intranet du CHU (Annexe 1) et une attestation de déclaration DEC20-358 a été générée pour cette étude (Annexe 2).

### **3.4 Consentement**

Un consentement libre et éclairé a été recueilli pour chaque patient via une note d'information délivrée individuellement (Annexe 3). Au-delà de 3 semaines après l'envoi de la note et en l'absence d'opposition de la part du patient, leurs données

étaient considérées comme utilisables. Mais à tout moment, le patient peut retirer son accord.

### **3.5 Critères d'inclusion**

Les critères d'inclusion étaient d'avoir un suivi au CHU de Lille dans le service de Chirurgie Maxillo-Faciale dans la consultation pluridisciplinaire de suivi, d'avoir un consentement éclairé, et de présenter une ostéite des maxillaires d'origine inflammatoire, aseptique.

### **3.6 Critères d'exclusion**

Tous les patients mineurs (au moment du recueil de données) ou dont un diagnostic différentiel a été posé ou ceux qui ont refusé le consentement ont été exclus.

### **3.7 Données recueillies**

Le recueil des données s'est déroulé de mai 2003 à octobre 2021 et a nécessité la relecture des dossiers des 14 patients inclus dans notre étude. Les données recueillies sont :

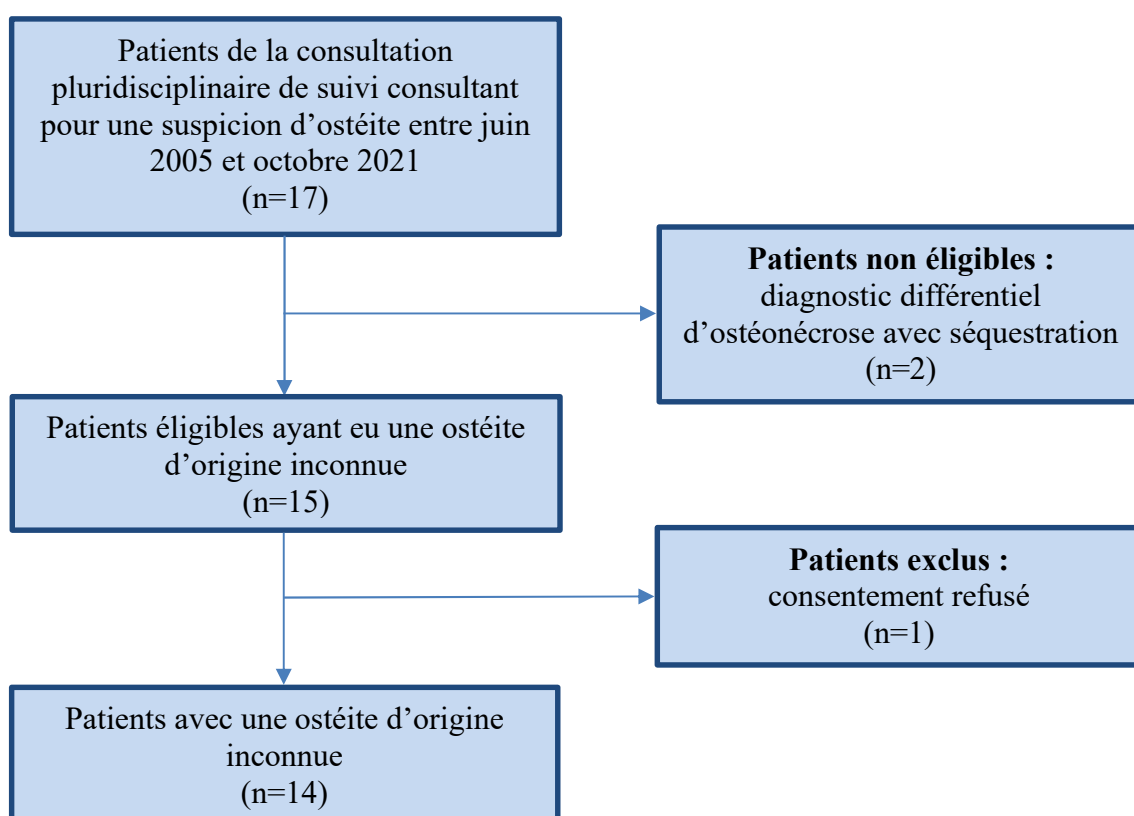
- le sexe,
- l'âge lors de la 1<sup>ère</sup> consultation,
- les antécédents médicaux,
- les antécédents dentaires,
- le professionnel ayant adressé le patient dans la consultation pluridisciplinaire,
- les symptômes observés,
- les spécialistes consultés au cours de la prise en charge,
- les localisations,
- les types de traitements administrés,
- l'efficacité des traitements utilisés,
- les examens réalisés,
- la durée de l'errance diagnostique,

- les diagnostics proposés.

## 4 Résultats

### 4.1 Flow-chart

Le flow chart décrit le recrutement de la population de cette étude (**Figure 3**). 17 patients sont pris en charge pour une suspicion d'ostéite chronique dans la consultation pluridisciplinaire de suivi au CHU de Lille. Deux n'ont pas pu être éligibles puisqu'ils ont présenté un diagnostic différentiel d'ostéonécrose avec séquestration au cours de leur prise en charge. Les 15 patients restants composent la population éligible à cette étude avec une ostéite inflammatoire, aseptique d'origine inconnue. Parmi ceux-ci, un patient n'a pas donné son consentement pour la recherche. La population de patients présentant une ostéite d'origine inconnue est donc de 14 patients.



**Figure 3 : flow-chart**

Les résultats concernant ces 14 patients sont synthétisés dans le Tableau 1. Les données recueillies sont reprises plus en détails dans les tableaux de l'Annexe 4.

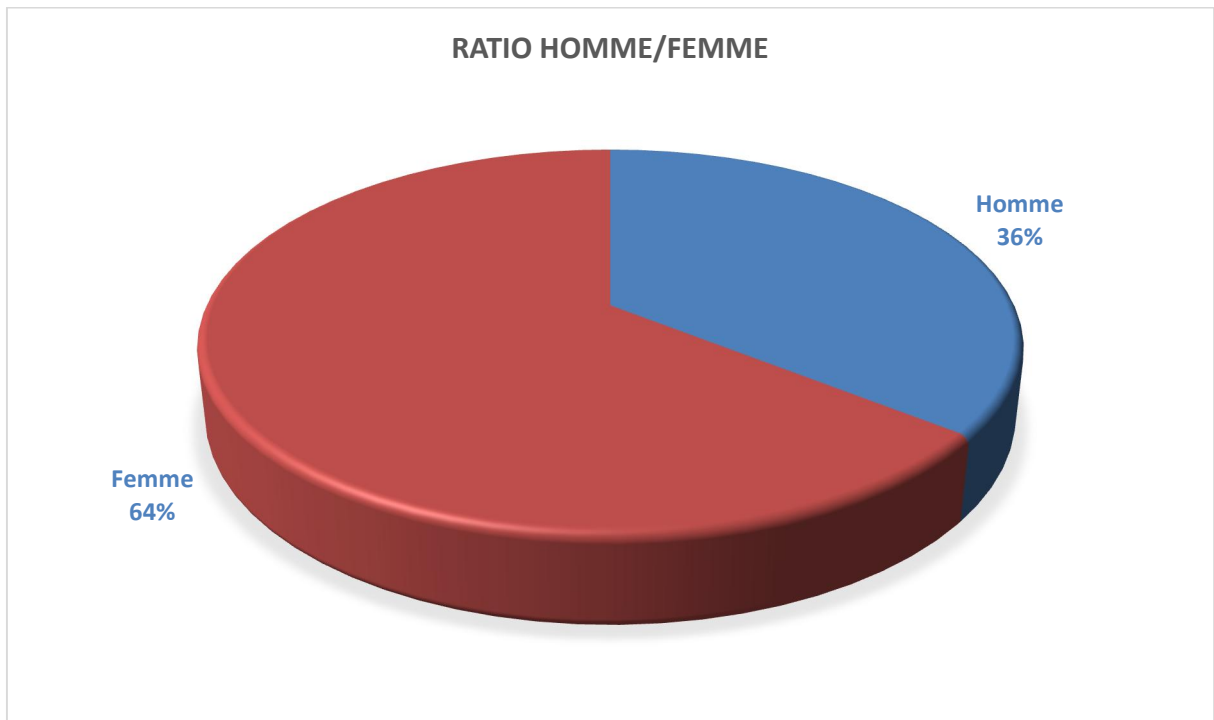


**Tableau 1** : synthèse d'extraction de données des 14 patients atteints d'ostéite primitive chronique des maxillaires dans la consultation de suivi pluridisciplinaire. En gras sont mentionnés les traitements efficaces sur la symptomatologie.

PATIENT		A	B	C	D	E	F	G	H	I	J	K	L	M	N
Genre		M	F	F	M	F	M	F	F	F	F	M	M	F	F
Age		15	67	81	13	57	40	68	69	54	44	20	54	71	74
ATCD	Généraux		X	X	X	X		X	X	X			X	X	X
	Rhumatologiques		X	X	X	X		X	X	X				X	X
	Dermatologiques						X	X	X					X	
Avulsions	Aucune				X				X						
	Liées à la douleur		X	X		X		X			X	X	X	X	X
	Non liées à la douleur	X					X			X					
Traitements	Antalgiques (dont les différents paliers)	1	1/2/3	1	1/2	1/2/3	1/2	1/3	1/2		2	1		2	1
	AINS	X	X		X		X	X	X				X		
	Antibiotiques	X	X	X	X	X	X	X	X		X	<b>X</b>	X	X	X
	Corticoïdes		X					X				X			
	Biphosphonates		X		<b>X</b>				X		X				
	Anti-TNF $\alpha$						<b>X</b>	<b>X</b>	X	X					

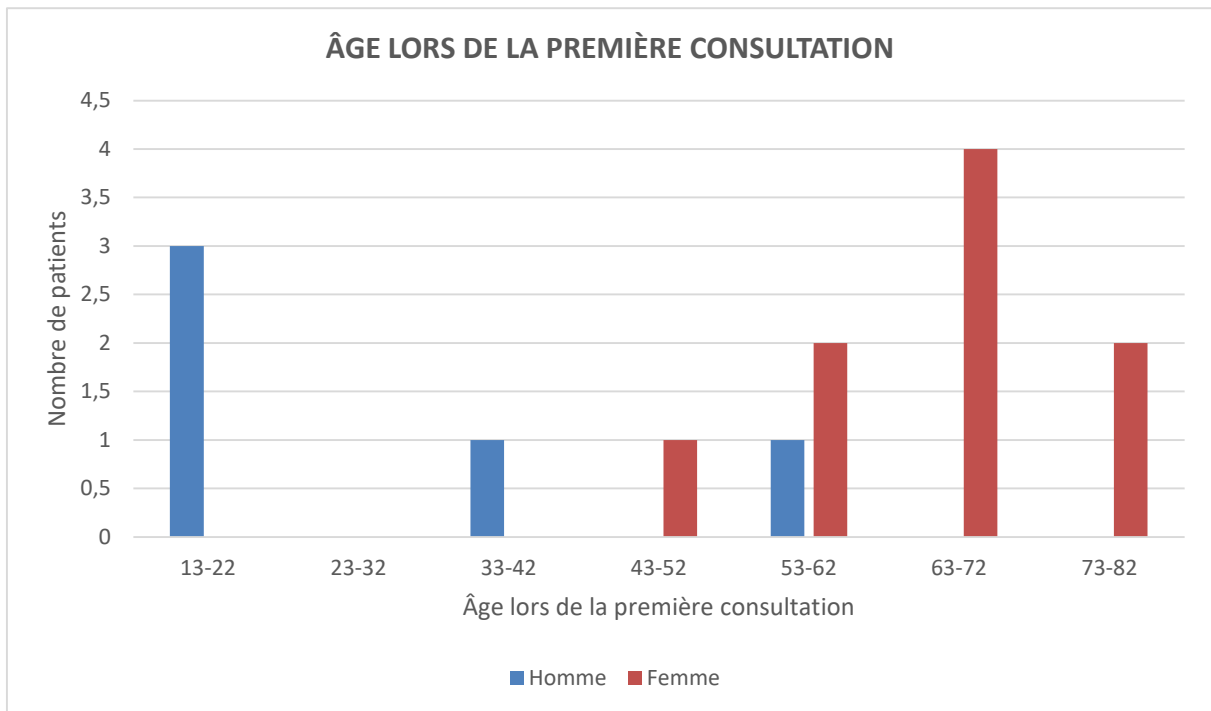
## 4.2 Caractéristiques générales

Parmi les 14 patients porteurs d'une ostéite primitive, 9 étaient des femmes et 5 étaient des hommes (**Figure 4**).



**Figure 4** : ratio homme/femme de la consultation pluridisciplinaire du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14)

La moyenne d'âge (lors de leur première consultation dans le service de Chirurgie Maxillo-Faciale) est de 52 ans avec un intervalle de confiance allant de 13 à 81 ans (**Figure 5**). La moyenne d'âge est de 65 ans chez les femmes, et de 28 ans chez les hommes.

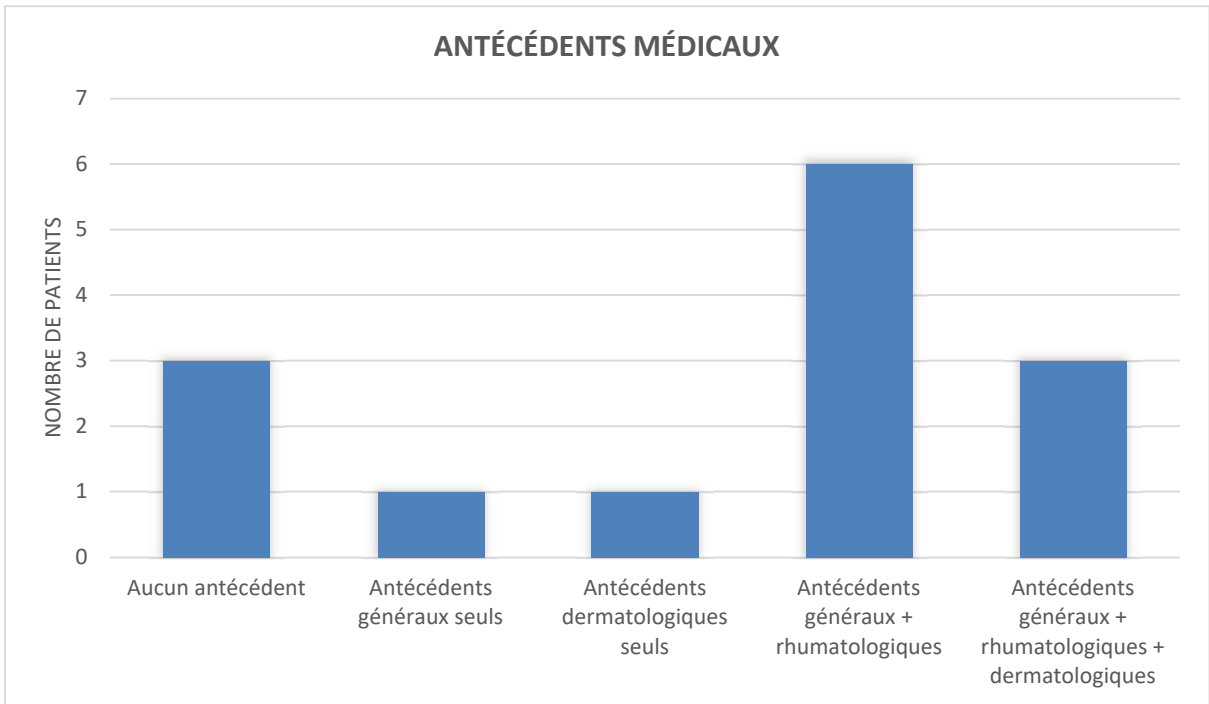


**Figure 5** : âge lors de leur première consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14).

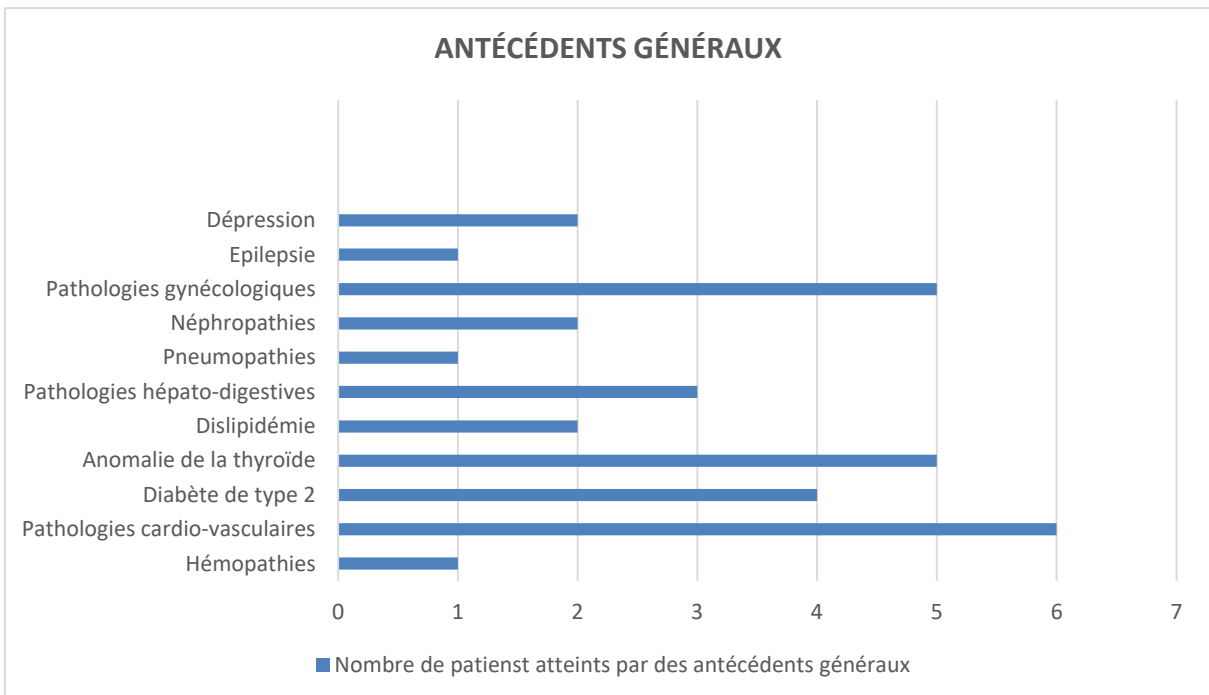
En s'intéressant aux antécédents médicaux, on peut les classer en 5 grandes catégories (**Figure 6**) :

- aucun antécédent,
- antécédents généraux (**Figure 7**) à type de : hémopathies (1 patient), pathologies cardio-vasculaires (6 patients), diabète de type 2 (4 patients), anomalies de la thyroïde (5 patients), dyslipidémie (2 patient), pathologies hépato-digestives (3 patients), pneumopathies (1 patient), néphropathies (2 patients), pathologies gynécologiques (5 patientes), épilepsie, dépression (2 patients) ;
- antécédents rhumatologiques (**Figure 8**) à type : inflammatoires (9 patients), ostéoporotiques (4 patients), arthrosiques (7 patients), traumatiques (7 patients), algiques (2 patients) ;
- antécédents dermatologiques à type de : psoriasis cutané, herpès labial, urticaire chronique, psoriasis, pustulose palmo-plantaire,

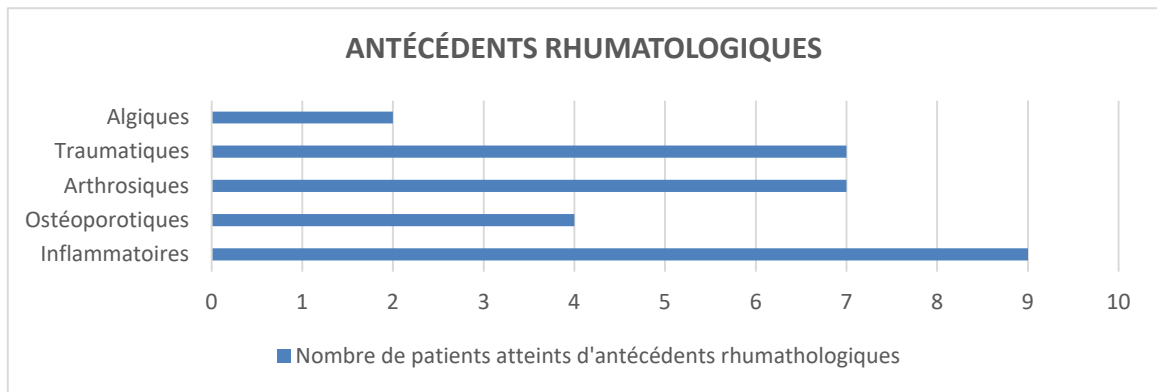
Certains patients n'ont aucun antécédent médical alors que d'autres en présentent de multiples.



**Figure 6** : antécédents médicaux des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14)



**Figure 7** : répartition des antécédents généraux des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14)

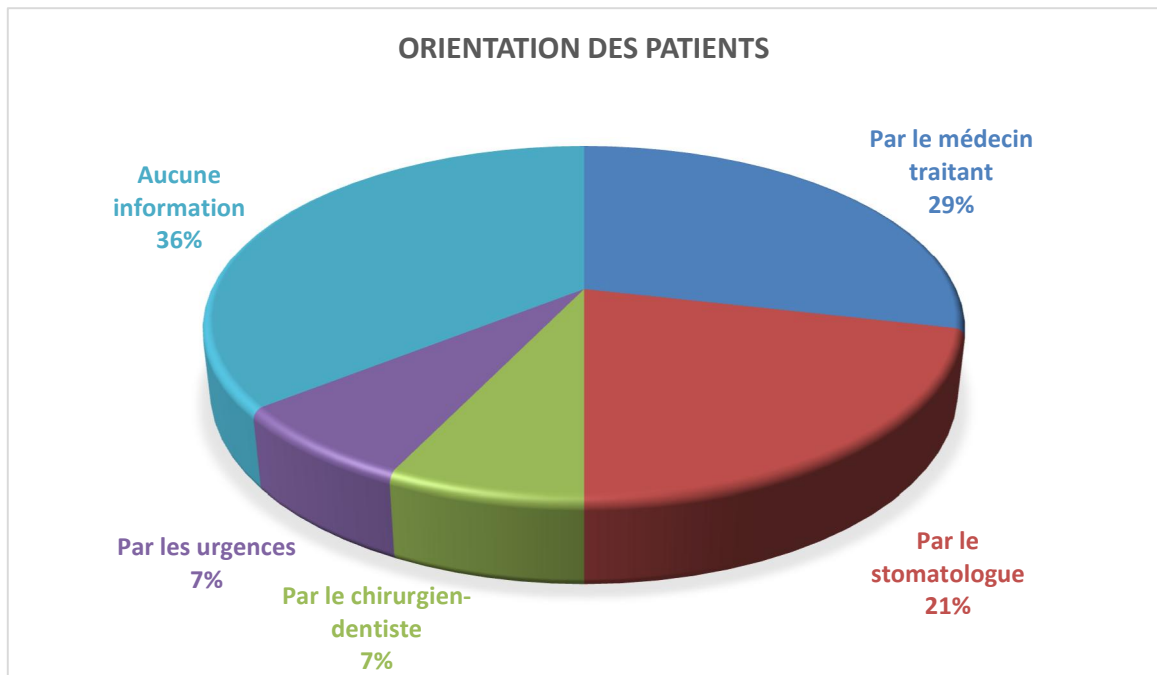


**Figure 8 : répartition des antécédents rhumatologiques des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14)**

### **4.3 Tableau clinique**

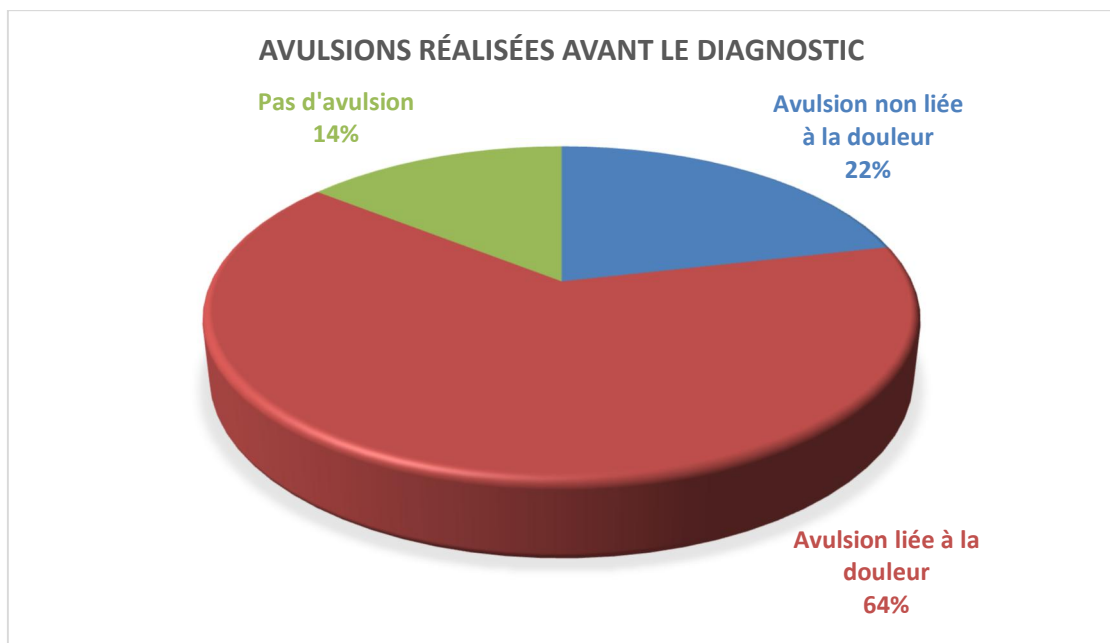
La prise en charge des patients à dans la consultation pluridisciplinaire de suivi s'étale sur une période moyenne de 5 ans, le suivi le plus court étant de quelques mois et le plus long de 14 ans, et comprenant des prises en charge actuellement en cours. Parmi, les patients, 8 ont été perdus de vue en cours de traitement, sans que la symptomatologie n'ait à priori entièrement disparue, et 5 sont encore en cours de prise en charge.

Les patients sont adressés pour une consultation spécialisée par leur médecin généraliste, un stomatologue, leur chirurgien-dentiste ou suite à un passage aux urgences (**Figure 9**). Dans certains cas, il est impossible de retracer l'historique précis.



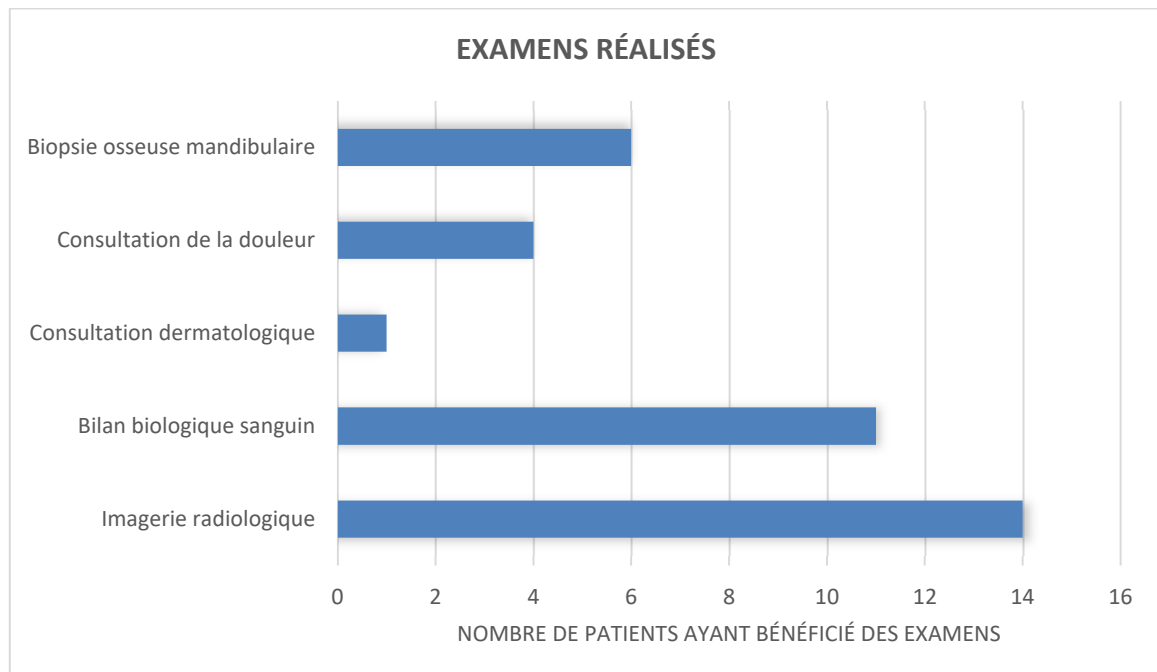
**Figure 9** : répartition des différents intervenants qui ont adressé les 14 patients vers la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

Au cours de la prise en charge antérieure à celle du CHU de Lille, 3 patients ont eu des extractions indépendantes de douleurs, 2 n'ont pas eu d'avulsion (mais l'un des 2 était en cours de traitement orthodontique) et 9 ont eu des avulsions consécutives à une douleur (**Figure 10**).



**Figure 10** : avulsions réalisées chez les 14 patients avant le diagnostic de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

La recherche du diagnostic repose sur la réalisation de nombreux examens et l'orientation vers des praticiens spécialisés (**Figure 11**). Au cours de la prise en charge antérieure et consécutive à celle du CHU de Lille, tous les patients ont eu recours à une imagerie radiographique, 11 ont réalisé un bilan biologique sanguin (à la recherche de marqueurs de l'inflammation, ou de mutation d'allèles prédisposant à des maladies rhumatologiques), 1 a consulté un dermatologue (adressé par le rhumatologue pour préciser la nature des lésions cutanées), 4 ont nécessité une consultation de la douleur pour adapter leur traitement antalgique, 6 ont été biopsiés au niveau de la mandibule. 8 patients ont bénéficié d'un bilan rhumatologique complet avec des examens radiologiques poussés et un bilan biologique sanguin.

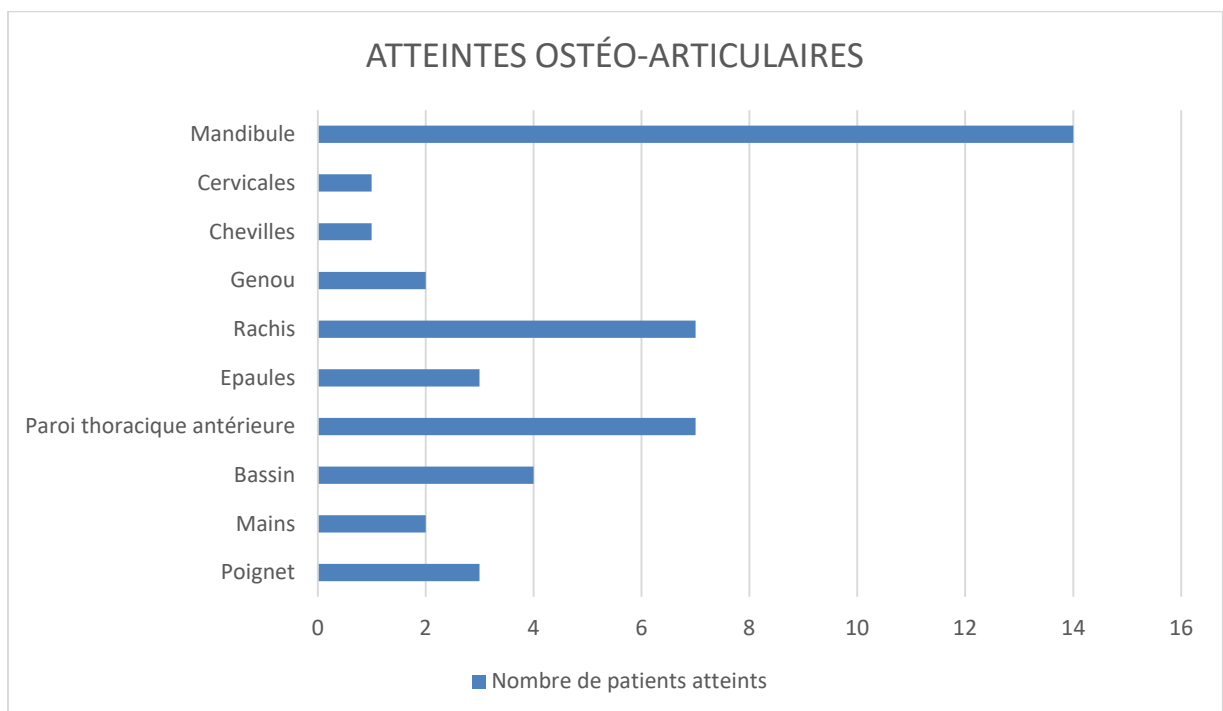


**Figure 11** : examens cliniques réalisés chez les 14 patients antérieurs ou consécutifs à la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

Différentes atteintes ostéoarticulaires associées à l'ostéite mandibulaire sont constatées ou découvertes de manière fortuite lors de l'interrogatoire au décours de la consultation pluridisciplinaire du CHU de Lille ou lors de scintigraphies osseuses (**Figure 12**) :

- le poignet = patient A, B et G,
- les doigts = patient I,
- l'articulation métatarso-phalangienne = patient E,
- le sacrum = patient B,

- le bassin = patient B et I,
- l'articulation sacro-iliaque = patient B et E,
- l'acétabulum = patient D,
- l'articulation sterno-claviculaire = patient B, F, I et J,
- la jonction sterno-costale = patient F et J,
- les côtes = patient H,
- l'épaule = patient C et H,
- l'articulation gléno-humérale = patient H,
- la scapula = patient D,
- le rachis = patient B, C, E, F, G, H et N,
- le genou = patient G et H,
- la cheville = patient H,
- les cervicales = patient N.



**Figure 12** : atteintes ostéo-articulaires rapportées chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

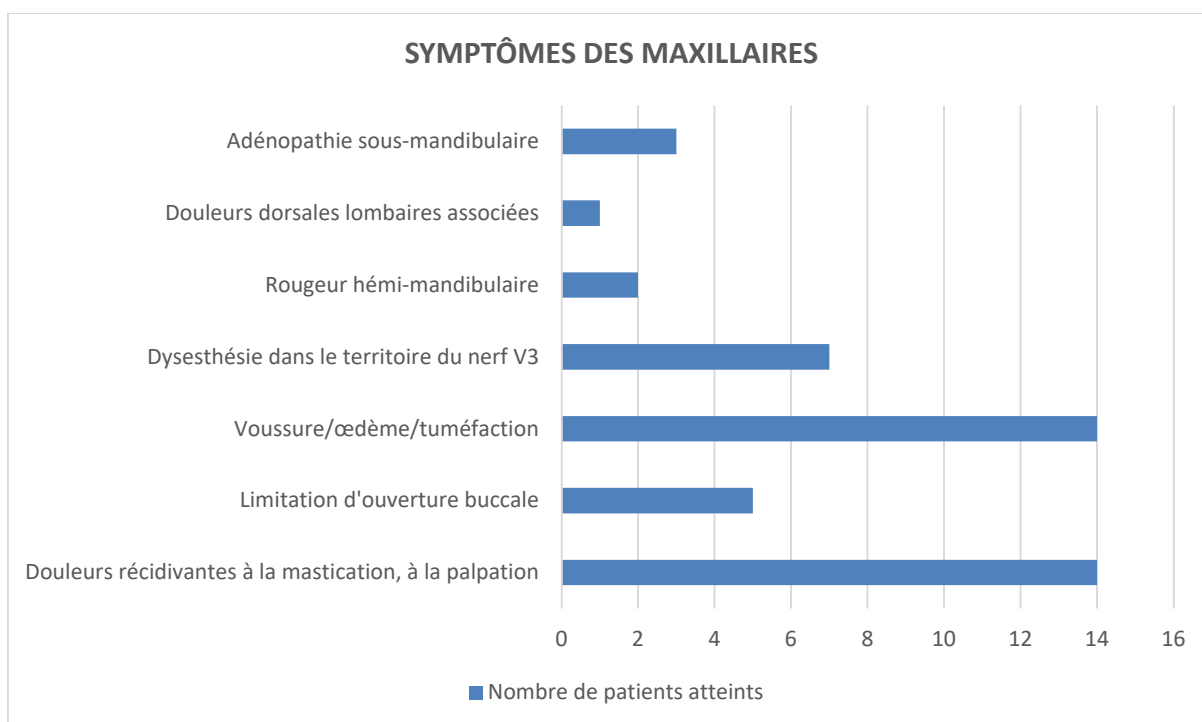
#### **4.4 Retentissements bucco-dentaires associés**

Les patients présentent différents symptômes qui se manifestent au niveau des maxillaires ou en association (**Figure 13**) :

- douleurs récidivantes mandibulaires, à la mastication, à la palpation,



- présence de limitation d'ouverture buccale,
- avec voussure osseuse/tuméfaction/œdème,
- avec dysesthésie dans le territoire du nerf mandibulaire V3,
- associées à une rougeur hémi-mandibulaire,
- associées à des douleurs dorsales lombaires qui se réveillent en même temps que les douleurs mandibulaires,
- associées à une adénopathie sous-mandibulaire lors des poussées douloureuses.



**Figure 13** : symptômes des maxillaires rapportés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

#### **4.5 Prise en charge thérapeutique**

Les praticiens ont eu recours à de nombreux traitements pour soulager la symptomatologie de leurs patients dès la survenue des symptômes osseux (prise en charge antérieure et consécutives à la consultation pluridisciplinaire du CHU de Lille) (**Figure 14**) :

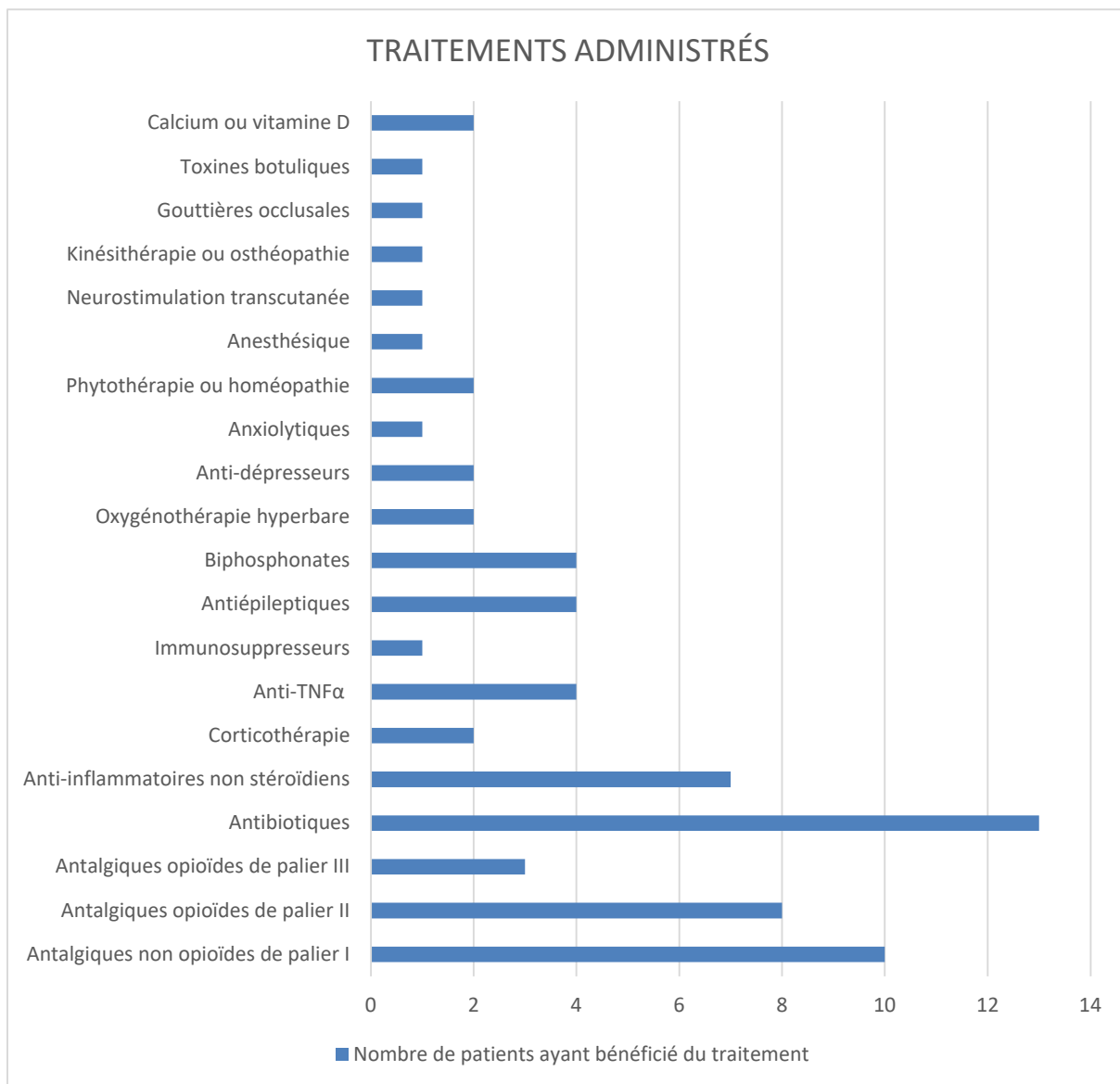
- antalgiques non opioïdes de palier I : paracétamol, néfopam,
- antalgiques opioïdes de palier II : paracétamol + tramadol, tramadol, paracétamol + opium + caféine, paracétamol + opium, paracétamol + dextropropoxyphène,

- antalgiques opioïdes de palier III : oxycodone, morphine,
- antibiotiques : amoxicilline, amoxicilline + acide clavulanique, doxycycline, ofloxacine, roxithomycine, clindamycine, spiramycine + métronidazole, métronidazole, spiramycine, cefpodoxime, ceftriaxone, pristinamycine, acide fusidique, lévofloxacine, sulfaméthoxazole + triméthoprim, rifampicine, moxifloxacine, ciprofloxacine, cefalexine, gentamicine, pipéracilline + tazobactam,
- anti-inflammatoires non stéroïdiens : ibuprofène, naproxène, piroxicam, kétoprofène, célécoxib, diclofénac, acide tiaprofénique,
- corticothérapie : prednisolone,
- anti-TNF $\alpha$  : etanercept, adalimumab, infliximab,
- immunosuppresseur : méthotrexate,
- antiépileptiques<sup>4</sup> : carbamazépine, gabapentine, prégabaline, oxycarbazépine,
- biphosphonates : pamidronate de sodium,
- oxygénothérapie hyperbare,
- anti-dépresseurs : miansérine, amitriptyline,
- anxiolytiques<sup>5</sup> : lorazépam,
- phytothérapie ou homéopathie,
- anesthésique : lidocaïne,
- neurostimulation transcutanée
- kinésithérapie ou ostéopathie,
- gouttières occlusales,
- toxines botuliques,
- calcium ou vitamine D.

---

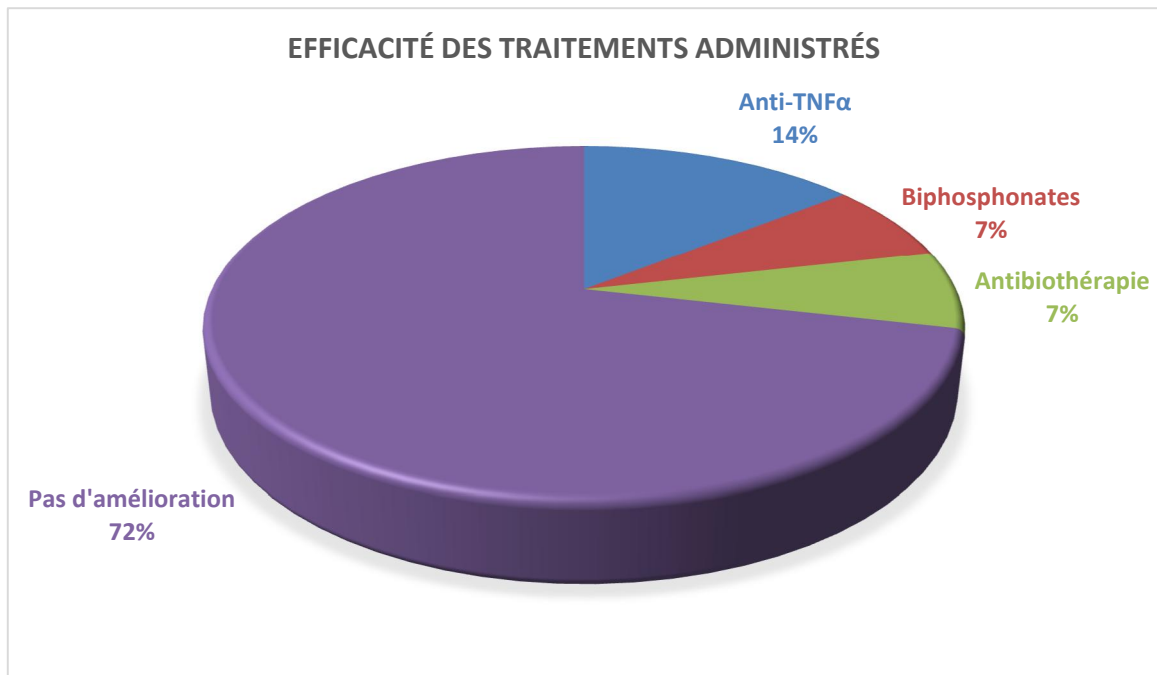
<sup>4</sup> Ils sont utilisés dans le cadre de douleurs neuropathiques et d'algies rebelles en tant que coanalgésiques : ils agissent contre la douleur mais n'ont pas été créés dans ce but (17).

<sup>5</sup> Ils permettent une relaxation musculaire pour soulager les spasmes musculaires liés à la douleur.



**Figure 14** : traitements administrés antérieurs ou consécutifs à la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille des 14 patients. Seuls les traitements prescrits ont été reportés ici, les éléments relatifs à l'automédication n'étant pas systématiquement reportés par les patients lors de la consultation.

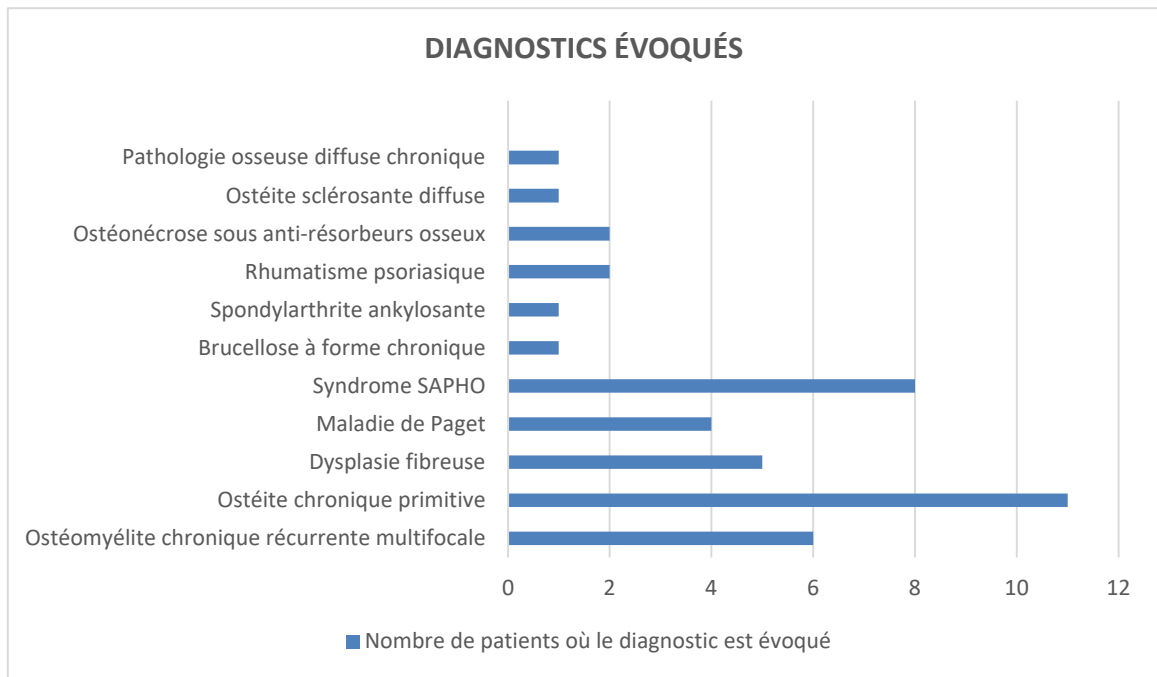
Parmi les traitements utilisés, seuls 3 semblent faire preuve d'efficacité au long cours (**Figure 15**) : les anti-TNF $\alpha$ , les biphosphonates et les antibiotiques. Les autres ont parfois été efficaces sur une courte période avant que la symptomatologie ne refasse surface.



**Figure 15** : efficacité des traitements administrés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille

De nombreux diagnostics différentiels sont évoqués et sont écartés au fur et à mesure grâce aux examens réalisés et aux réponses aux traitements administrés, selon qu'elles soient positives ou négatives (**Figure 16**). Les différents diagnostics proposés lors de la prise en charge sont :

- ostéomyélite chronique récurrente multifocale,
- ostéite chronique primitive,
- dysplasie fibreuse,
- maladie de Paget,
- syndrome SAPHO,
- brucellose à forme chronique,
- spondylarthrite ankylosante,
- rhumatisme psoriasique,
- ostéonécrose sous anti-résorbeurs osseux,
- ostéite sclérosante diffuse mandibulaire (OSDM),
- pathologie osseuse diffuse chronique.



**Figure 16 : diagnostics proposés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille**

## 5 Discussion

### 5.1 Epidémiologie

Le syndrome SAPHO débiterait habituellement chez l'enfant ou l'adulte jeune (18) vers l'âge moyen de 38 ans (3). L'étude ici nous rapporte plutôt une incidence dans une population bien plus âgée avec une moyenne de 52 ans. Il existerait une discrète prédominance féminine (15) équivalente à sept cas sur dix (18), qui est confirmée ici à 6,4 cas sur dix.

### 5.2 Etiopathogénie

Le diagnostic des ostéites primitives repose sur un diagnostic par élimination. En effet, il est indispensable d'éliminer en premier les causes traumatiques ou infectieuses par exemple. Il en est de même pour le diagnostic du syndrome SAPHO. On est difficilement amené à réaliser un tel diagnostic car le tableau clinique est beaucoup plus complexe que pour l'ostéite simple. La littérature décrit dans le syndrome SAPHO « un processus inflammatoire aseptique » (3,19). Cependant, dans les biopsies réalisées dans notre cohorte, on retrouve des germes saprophytes de la cavité buccale : *streptocoques anginosus*, *microcoques luteus*, *staphylocoque capitis*, *staphylocoque oralis*, *streptocoque oralis*, *heamophilus para influenzae* et *staphylococcus epidermus*. Parmi elles, certaines seraient responsables d'infections ostéoarticulaires (20,21). Certains auteurs, Fried et al. ont trouvé dans l'os biopsié des bactéries : *Propionibacterium acnes* et *Staphylococcus capitis* (18). *Propionibacterium acnes* apparaîtrait dans 42% des biopsies osseuses (22). Cela pourrait expliquer que chez certains patients l'antibiothérapie est partiellement efficace. Cependant, l'hypothèse infectieuse est controversée par cette inconstance d'efficacité et par l'absence de dégradation des lésions avec la corticothérapie (3).

La biopsie osseuse est réalisée régulièrement pour écarter les causes infectieuses voire tumorales, et peut permettre de trouver un traitement adapté (3). Cependant, elle n'apporte souvent aucune information intéressante car le fragment prélevé est inexploitable ou souvent ne révèle aucun germe (15). Par ailleurs, certains patients sont réticents et s'opposent à sa réalisation, retardant ainsi le diagnostic.

Une composante génétique pourrait exister. L'antigène HLA B27 est cherché à chaque fois au cours des hospitalisations pour bilan rhumatologique puisqu'il interviendrait dans 4 à 18% de syndrome SAPHO (3), sur un terrain génétique prédisposant proche des spondylarthropathies. Dans son étude, Hayem retrouve en effet l'allèle HLA B27 chez 13% des patients avec un SAPHO, ce qui est légèrement supérieur à l'incidence de la population générale. Un lien très controversé entre l'antigène HLA B27 et le SAPHO est donc suggéré (23–25).

Par ailleurs, en s'intéressant aux antécédents médicaux de notre cohorte de patients, on note des cas de dysthyroïdie présent chez 43% des patients. On peut se demander si cette incidence est aléatoire ou si un lien de causalité pourrait exister : le SAPHO prédisposerait à la dysthyroïdie ou inversement, la dysthyroïdie serait un facteur de risque du SAPHO. Aucun lien n'a été évoqué à ce sujet dans la littérature pour le moment.

### **5.3 Orientation des patients**

Les patients sont adressés au CHU de Lille dans 50% des cas par le médecin traitant ou le stomatologue. On peut cependant supposer que l'intervention du stomatologue survient après l'orientation du patient par son chirurgien-dentiste qui rencontre des difficultés de diagnostic et souhaite obtenir un avis plus éclairé. Seul un patient a été adressé directement par son chirurgien-dentiste.

### **5.4 Symptomatologie**

Les signes cliniques rencontrés comprennent tous des douleurs mandibulaires car on s'est intéressé aux patients orientés vers une consultation pluridisciplinaire alliant un chirurgien-dentiste, un chirurgien maxillo-facial et une rhumatologue sensibilisée aux pathologies osseuses maxillaires. Il faut penser que si on avait réalisé la même étude dans le service de rhumatologie ou de dermatologie, le tableau clinique évocateur d'un syndrome SAPHO montrerait d'avantages de signes articulaires ou dermatologiques et que seule une partie des patients présenteraient des douleurs mandibulaires. Les manifestations cutanées et ostéoarticulaires sont les plus fréquentes dans le syndrome SAPHO (3).

La littérature rapporte une atteinte mandibulaire dans 10% des cas (3,26). Dans une étude sur 85 patients diagnostiqués du SAPHO, Kahn isole 7 patients associant

également une atteinte mandibulaire (27). La plupart du temps, cette atteinte est unilatérale et provoque de violentes douleurs récidivantes de l'hémi-mandibule associées parfois à un trismus, une limitation de l'ouverture buccale, ou des paresthésies. Il arrive d'observer une déformation progressive de l'ovale du visage avec des déformations du rebord mandibulaire. Cette localisation semble la plus douloureuse puisqu'on constate l'utilisation régulière d'antalgiques de classe III pour les calmer. A ce jour, nous n'avons pas retrouvé dans la littérature l'usage et l'efficacité des antalgiques de classe III en 1<sup>ère</sup> intention pour cette symptomatologie. Toutefois, l'atteinte mandibulaire peut rester cliniquement silencieuse et n'être découverte qu'à la scintigraphie. La composante n'est pas infectieuse avec une absence de pus, de fistule, de séquestre osseux, ce qui la distingue bien de l'ostéonécrose des maxillaires.

Il arrive que l'articulation temporo-mandibulaire soit atteinte, ce qui a été constaté chez la patiente J avec dans un premier temps une ostéolyse de l'ATM qui s'est progressivement ankylosée. Kotaki dans un rapport relate d'une patiente qui a également présenté un trismus avec une ostéolyse de l'ATM sans pourtant arriver au stade de l'ankylose (28).

Il arrive de découvrir des lésions osseuses fortuitement, sans qu'elles ne soient symptomatiques (15), ce qui a été le cas chez les patients B, C, D, E, F, G, H, I, J et N au cours de scintigraphies osseuses généralement.

Dans le SAPHO, les manifestations ostéoarticulaires concernent fréquemment certains os ou certaines articulations. L'atteinte de la paroi thoracique antérieure intervient habituellement dans 65 à 90% des cas (29), avec notamment l'articulation sterno-claviculaire : c'est l'atteinte la plus fréquente avant le rachis et le bassin. Dans notre étude, on reste en-dessous de ces proportions avec une atteinte de 50% des patients. L'atteinte rachidienne observée dans 32 à 52% (8,30) des cas est également retrouvée dans notre étude dans des proportions similaires car 50% des patients sont atteints, particulièrement avec l'implication du rachis dorso-lombaire. Enfin, l'atteinte du bassin intervient chez 29% des patients de cette étude.

Les manifestations cutanées représentent des symptômes associés observés avec un psoriasis cutané pour le patient F, une urticaire chronique pour le patient G, et des antécédents d'acné, un psoriasis et une pustulose palmoplantaire pour le patient H. La pustulose palmoplantaire (PPP) et l'acné sont considérées comme les



lésions les plus fréquentes étant rapportées chez 50% et 10-18% des patients ayant un syndrome SAPHO (15). En effet, dans l'étude de Kanh, sur les 7 patients atteints de SAPHO avec une répercussion mandibulaire, 6 ont présenté des signes cutanés (27). Il faut quand même émettre une réserve sur le fait qu'un épisode cutané peut avoir été omis dans l'interrogatoire et oublié par le patient quand les manifestations osseuses surviennent des années plus tard.

De façon plus hypothétique, des manifestations digestives sont rapportées, à type maladie de Crohn ou rectocolite hémorragique (1). Un cas évocateur de rectocolite hémorragique a été ici suggéré mais semble plutôt secondaire à l'intolérance aux AINS.

Les manifestations apparaissent de façon asynchrone le plus souvent, et il a déjà été rapporté un délai de 20 ans entre les signes osseux et cutanés (31).

Enfin, un tableau clinique du syndrome SAPHO est rarement complet (32).

## **5.5 Evolution**

L'apparition des symptômes évolue de façon chronique avec un enchaînement de poussées et de phases de rémission. On constate de nombreuses rechutes suite à l'arrêt de traitement.

De nombreux facteurs de l'inflammation sont retrouvés chez les patients présentant un SAPHO actif (33). Et la bactérie *Propionibacterium acnes* pourrait être à l'origine d'une production accrue de facteurs de l'inflammation et de TNF- $\alpha$  (34).

## **5.6 Diagnostic**

Poser le diagnostic d'ostéite primitive dans un premier temps, puis de syndrome SAPHO dans un second temps est primordial. Cela empêche les explorations intrusives et les traitements inadaptés. Mais établir un tel diagnostic semble très compliqué dès lors qu'on calcule une prise en charge moyenne de 5 ans dans le service, qu'un patient nous affirme « c'est un parcours de fou » ou encore « il ne m'a pas cru », en parlant de la prise en charge de douleurs par un chirurgien-dentiste. Une enquête de Witt et al. établit un délai diagnostic moyen de 3,8 ans avec une satisfaction pour la prise en charge de 23 sur une échelle de 0 à 100 (35).

Le diagnostic d'ostéite au niveau de la mâchoire est compliqué à établir car le simple examen clinique est souvent insuffisant, il faut souvent avoir recours à des

examens radiologiques, histologiques et bactériologiques. L'interrogatoire clinique a une importance particulière, permettant d'exclure tout agent causal (16,36–38). Tous cas d'ostéite chronique primitive de la mandibule doivent faire rechercher un syndrome SAPHO (18) : dans une étude, le diagnostic de SAPHO a été évoqué chez 70% des cas d'ostéomyélite chronique primitive (39,40). Par ailleurs, le rapport de cas de Pottecher montre un syndrome SAPHO qui a été découvert uniquement grâce à l'exploration d'une ostéomyélite chronique de la mandibule (32). Dans notre étude, de nombreux patients ont été diagnostiqués pour une ostéite de la mandibule sans que le diagnostic de syndrome SAPHO ne soit encore posé.

La présence d'une ostéite non infectieuse est très spécifique du syndrome SAPHO mais elle n'est pas pathognomonique. On note également qu'il n'y a pas d'ostéite dans les spondylarthrites ankylosantes ni dans les polyarthrites rhumatoïdes (2).

La sensibilité des examens radiographiques est faible surtout au début de la maladie, mais ils se précisent et évoluent dans le temps (29). La scintigraphie osseuse (**Figure 17**) semble la meilleure alliée car elle a permis à de nombreuses reprises de mettre en évidence des foyers d'hyperfixation jusqu'alors asymptomatiques mais très évocateurs d'un syndrome SAPHO.



**Figure 17** : scintigraphie osseuse du corps entier avec biphosphonate marqué au Technétium 99 (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire)

L'examen radiographique permet de mettre en évidence différents aspects osseux selon le stade de l'ostéite (**Figure 18**) :

- phase de début : on assiste à une ostéolyse et à une réaction périostée,
- phase d'état : l'aspect scléreux se développe progressivement, l'ostéolyse régresse, les lésions s'étendent,
- phase tardive : prédominance de la sclérose, densité osseuse homogène caractéristique, et réaction périostée compacte, déformant la mandibule plus marquée chez le sujet jeune, et qui est, chez l'adulte, un indicateur de l'inflammation chronique ou récurrente. L'ostéolyse réapparaît lors des périodes de poussée (16).



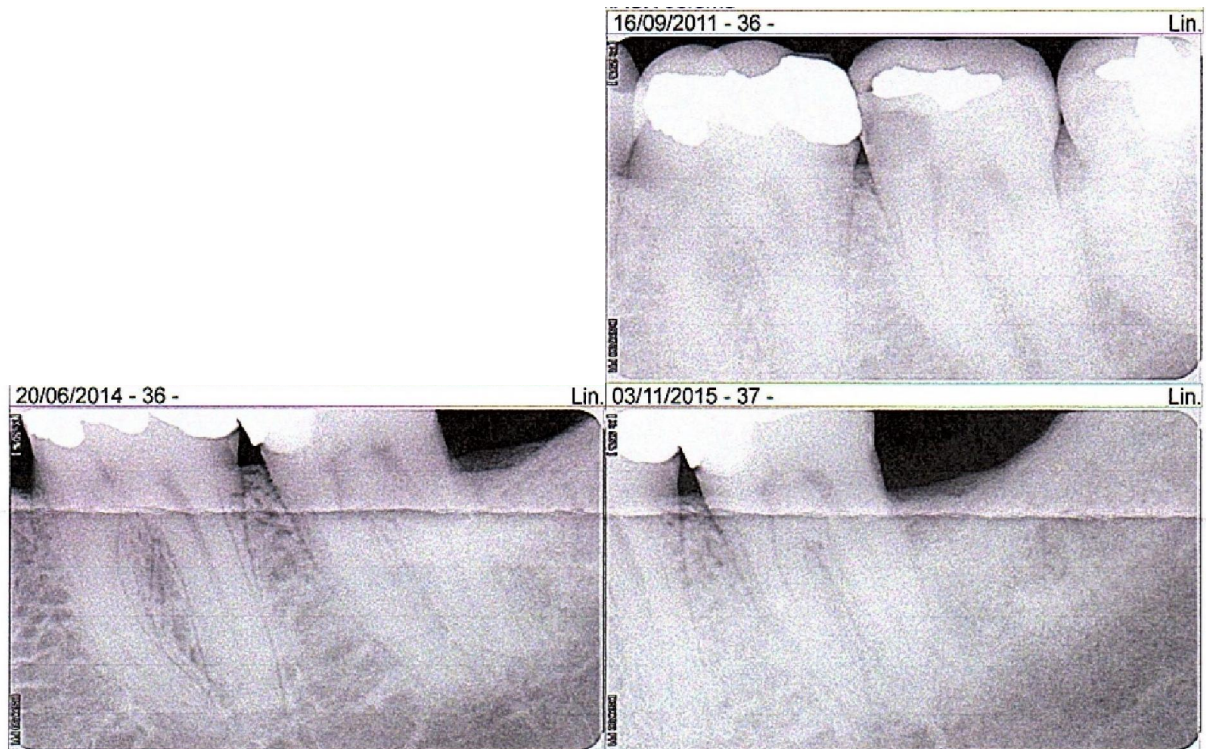
- a. On est en phase de début : on observe une ostéolyse ainsi qu'une apposition périostée.



- b. On est en phase tardive : on observe une sclérose avec une densité osseuse caractéristique (ostéocondensation).

**Figure 18** : scanner mettant en évidence les différents aspects osseux selon les stades de l'ostéite mandibulaire (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire). Les radiographies sont prises à 2 ans d'intervalle, la radiographie la plus récente étant en bas.

Par ailleurs, on constate que 64% des patients ont subi des avulsions de dents douloureuses dans le secteur de l'ostéite diagnostiquée par la suite. Seulement 14% des patients ont eu la chance de ne pas subir d'intervention invasive. Il arrive parfois que l'ostéite se déclare après une avulsion justifiée (**Figure 19**).



**Figure 19** : radiographies rétro-alvéolaires avant/après les avulsions des 4 dents de sagesse en 2011. Suite à l'avulsion de la dent n°38, il y a eu un retard de cicatrisation avec complication infectieuse (à type d'alvéolite suppurée). Après disparition de l'étiologie infectieuse, les douleurs ont persisté et une suspicion d'ostéite dans le secteur 3 a été évoquée quelques temps après (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire du CHU de Lille).

La difficulté pour le chirurgien-dentiste face à des douleurs sans étiologie est de ne pas céder à un diagnostic trop hâtif mais de bien procéder par étapes pour éviter les avulsions multiples et inutiles qui sont souvent réalisées au début de la maladie (41). Il doit retracer l'histoire de la douleur, réaliser les tests de vitalité de la/les dent(s) concernée(s) par la douleur, réaliser des radiographies complémentaires, proposer au patient une antibiothérapie et/ou des anti-inflammatoires non stéroïdiens pour mettre de côté certains diagnostics. Son rôle est de diagnostiquer l'ostéite chronique ou d'admettre la limite de ses compétences et d'adresser le patient chez un spécialiste en chirurgie orale ou un chirurgien-maxillo-facial pour permettre la meilleure prise en charge possible du patient.

## 5.7 Traitements

La prise en charge de la symptomatologie est souvent très complexe. Elle passe en première intention par l'administration d'antalgiques et d'antibiotiques dans

l'hypothèse que la cause soit infectieuse : les diagnostics différentiels doivent être éliminés. C'est pourquoi on obtient de tels résultats : dans 7% des cas seulement, l'antibiothérapie a été efficace pour les patients de notre étude. En l'absence d'amélioration de la symptomatologie douloureuse, des anti-inflammatoires non stéroïdiens peuvent être utilisés. Enfin, dans certains cas et en cas d'échec des traitements précédents, les biphosphonates ou la biothérapie par anti-TNF $\alpha$  sont proposés dans le cadre d'une consultation par le rhumatologue ayant établi préalablement le syndrome SAPHO. Dans 7% des cas, les biphosphonates (pamidronate de sodium notamment) ont été efficaces. Les meilleurs résultats sont retrouvés avec les anti-TNF $\alpha$  dans 14% des cas, en particulier avec l'étanercept, les 2 autres anti-TNF $\alpha$  (adalimumab et infliximab) n'ayant pas démontré de bons résultats parmi nos patients les ayant reçus (n=2). Néanmoins, une patiente de notre étude a été soulagée par l'étanercept de toutes ses douleurs dans un contexte rhumatologique important à l'exception de ses douleurs mandibulaires. D'autres études rapportent un bon taux de succès avec l'utilisation régulière d'infliximab (35,42,43). Certains patients de notre étude ont présenté une contre-indication aux traitements de seconde intention (AINS et biothérapie à cause d'une néphrectomie par exemple), échouant ainsi à proposer une prise en charge symptomatologique adaptée aux douleurs de l'ostéite. La gestion de la symptomatologie reste cependant très complexe étant donné qu'il n'y a pas ou très peu d'amélioration dans 72% des cas. L'utilisation de biphosphonates dans une étude de Sulko s'avère être très efficace dans la forme infantile du syndrome, l'OCMR, car 32 des 41 patients ont obtenu une rémission de leurs symptômes (44). Assmann démontre dans une étude interventionnelle que les antibiotiques utilisés de manière continue au-delà de 4 mois aura un effet bénéfique alors qu'une antibiothérapie discontinuée détériore les symptômes (45).

## **5.8 Pour le Chirurgien-Dentiste**

Face à un patient qui décrit des douleurs et symptômes évocateurs d'une ostéite, le chirurgien-dentiste doit s'efforcer de rechercher toutes les causes possibles.

Un fois le diagnostic posé et les traitements mis en place, il a pour mission de maintenir le meilleur état bucco-dentaire possible et si besoin de réaliser l'éviction

des foyers infectieux bucco-dentaires. En effet, la mise en place de traitements par anti-TNF $\alpha$  nécessite au préalable à l'éviction de tous foyers infectieux (46).

La prise en charge bucco-dentaire des patients présentant un syndrome SAPHO requiert quelques mises en garde. Les implants sont contre-indiqués en raison des modifications de la trame osseuse sur les sites de l'ostéite (47).

Il faut s'orienter au maximum vers une prise en charge pluridisciplinaire face à un syndrome qui fait appel à différentes composantes. Ainsi, l'équipe pourra se composer d'un rhumatologue, dermatologue, psychothérapeute, kinésithérapeute, médecin généraliste et chirurgien-dentiste en cas d'atteinte mandibulaire (48,49). On constate dans notre étude l'intérêt d'une correspondance la plus précise possible entre les intervenants pour minimiser la perte d'information entre les consultations.

## 6 Conclusion

Le diagnostic d'ostéite mandibulaire primitive chronique n'est pas un acte aisé et anodin. En effet, il demande souvent du temps, de nombreux examens complémentaires et une concertation pluridisciplinaire avec différents professionnels médicaux. Il est pourtant primordial pour éviter des soins délétères ou une errance thérapeutique pendant laquelle le patient continue de subir l'évolution de la maladie et ses répercussions douloureuses.

Une fois ce diagnostic posé, il est important d'approfondir l'interrogatoire médical pour trouver d'éventuels symptômes associés présents ou passés. Des atteintes osseuses, articulaires ou cutanées associées peuvent permettre d'intégrer cette ostéite mandibulaire dans un syndrome rare : le SAPHO. Ce diagnostic est établi par élimination et guidé par la réponse aux différents traitements instaurés, en particulier l'efficacité de la biothérapie par anti-TNF $\alpha$ . Cette démarche nécessite une équipe pluridisciplinaire avec le rôle primordial du rhumatologue.

Le chirurgien-dentiste peut intervenir en première ligne pour diagnostiquer la présence d'une ostéite mandibulaire ou, s'il a un doute ou si cela sort de son champ de compétence, pour adresser le patient à un confrère spécialisé dans les douleurs osseuses. Ainsi, il est important d'inscrire le patient dans une équipe pluridisciplinaire pour éviter l'errance thérapeutique et pour la prise en charge de ses douleurs récurrentes et impactant fortement la qualité de vie du patient.



## Index des figures

Figure 1 : pustulose plantaire (15).....	10
Figure 2 : hyperostose caractérisée par un œdème de la région sterno-claviculaire (10).....	10
Figure 3 : flow-chart.....	16
Figure 4 : ratio homme/femme de la consultation pluridisciplinaire du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14).....	18
Figure 5 : âge lors de leur première consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14). ....	19
Figure 6 : antécédents médicaux des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14) .	20
Figure 7 : répartition des antécédents généraux des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14) .	20
Figure 8 : répartition des antécédents rhumatologiques des patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille de juin 2005 à octobre 2021 (n=14).....	21
Figure 9 : répartition des différents intervenants qui ont adressé les 14 patients vers la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille.....	22
Figure 10 : avulsions réalisées chez les 14 patients avant le diagnostic de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille.....	22
Figure 11 : examens cliniques réalisés chez les 14 patients antérieurs ou consécutifs à la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille .....	23
Figure 12 : atteintes ostéo-articulaires rapportées chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille.....	24
Figure 13 : symptômes des maxillaires rapportés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille.....	25
Figure 14 : traitements administrés antérieurs ou consécutifs à la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille des 14 patients. ....	27
Figure 15 : efficacité des traitements administrés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille.....	28
Figure 16 : diagnostics proposés chez les 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille .....	29
Figure 17 : scintigraphie osseuse du corps entier avec biphosphonate marqué au Technétium 99 (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire).....	35
Figure 18 : scanner mettant en évidence les différents aspects osseux selon les stades de l'ostéite mandibulaire (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire).....	36
Figure 19 : radiographies rétro-alvéolaires avant/après les avulsions des 4 dents de sagesse en 2011 (patient de la consultation de suivi pluridisciplinaire du CHU de Lille).....	37

## Index des tableaux

Tableau 1 : synthèse d'extraction de données des 14 patients atteints d'ostéite primitive chronique des maxillaires dans la consultation de suivi pluridisciplinaire .....	17
--	----

## Références bibliographiques

1. Hayem G. Syndrome SAPHO. *La Lettre du Rhumatologue*. 2004;(301):24-33.
2. Perdriger A, Renault J, Lagente V. L'utilisation des biothérapies dans le syndrome SAPHO [Thèse pour le diplôme d'Etat de Docteur en Chirurgie Dentaire]. [Rennes]; 2021.
3. Gharsallah I, Souissi A, Dhahri R, Boussetta N, Sayeh S, Métoui L, et al. Le syndrome SAPHO. *La Revue de Médecine Interne*. 2014;35(9):595-600.
4. Jonette E. Keri. Acné vulgaire - Troubles dermatologiques [Internet]. Édition professionnelle du Manuel MSD. 2020 [cité 18 févr 2022]. Disponible sur: <https://www.msmanuals.com/fr/professional/troubles-dermatologiques/acn%C3%A9-et-pathologies-apparent%C3%A9es/acn%C3%A9-vulgaire>
5. Windom RE, Sanford JP, Ziff M. Acne conglobata and arthritis. *Arthritis & Rheumatism*. 1961;4(6):632-5.
6. Sasaki T. A case with osteomyelitis of the bilateral clavicles association with pustulosis palmaris et plantaris. *Rinsho Seikeigeka*. 1967;2:333-7.
7. Bookbinder SA, Fenske NA, Clement GB, Espinoza LR, Germain BF, Vasey FB. Clavicular Hyperostosis and Acne Arthritis. *Ann Intern Med*. 1982;97(4):615-6.
8. Sonozaki H, Mitsui H, Miyanaga Y, Okitsu K, Igarashi M, Hayashi Y, et al. Clinical features of 53 cases with pustulotic arthro-osteitis. *Ann Rheum Dis*. 1981;40(6):547-53.
9. Chamot AM, Benhamou CL, Kahn MF, Beranek L, Kaplan G, Prost A. Acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis syndrome. Results of a national survey. 85 cases. *Rev Rhum Mal Osteoartic*. 1987;54(3):187-96.
10. Rukavina I. SAPHO syndrome: a review. *J Child Orthop*. 2015;9(1):19-27.
11. Job-Deslandre C. Ostéite chronique multifocale récurrente : prise en charge, suivi et évolution. *Archives de Pédiatrie*. 2012;19(6):76-7.
12. Wipff J, Adamsbaum C, Kahan A, Job-Deslandre C. Ostéites chroniques multifocales récidivantes. *Revue du rhumatisme*. 2011;78(4):329-34.
13. Wipff J. OCMR : un SAPHO pédiatrique ? *Rhumatos*. 2014;11(96):66-72.
14. Schilling PF. Le syndrome SAPHO [Internet]. Orpha.net. 2004 [cité 18 févr 2022]. Disponible sur: <http://www.orpha.net/data/patho/FR/fr-sapho.pdf>
15. Boutry N, Pruvost I, Mazingue F, Budzik J-F, Moraux A, Cotten A. Syndrome SAPHO et ostéomyélite chronique récurrente multifocale. In: *Imagerie Musculosquelettique : Pathologies Générales*. 2e Edition. Elsevier; 2013. p. 201-18.

16. Maes J-M, Raoul G, Omezzine M, Ferri J. Ostéites des os de la face. *Médecine buccale*. 2016;28-375-C-10.
17. VIDAL, la base de référence sur les médicaments [Internet]. VIDAL. [cité 14 févr 2022]. Disponible sur: <https://www.vidal.fr/medicaments.html>
18. Aubry-Rozier B, Basch A, Dudler J. Ostéomyélite sclérosante diffuse de la mandibule et SAPHO. *La Revue de Médecine Interne*. 2012;33(6):34-7.
19. Lesclous P. Prescription des antibiotiques en pratique bucco-dentaire: Recommandations Afssaps 2011. *Med Buccale Chir Buccale*. 2011;17(4):334-46.
20. Desplaces N. Les bactéries anaérobies en pathologie osseuse. *Médecine et Maladies Infectieuses*. 2000;30(2):97-101.
21. Assmann G, Simon P. The SAPHO syndrome--are microbes involved? *Best Pract Res Clin Rheumatol*. 2011;25(3):423-34.
22. Berthelot J-M, Corvec S, Hayem G. SAPHO, autophagie, IL-1, FoxO1, et *Propionibacterium (Cutibacterium) acnes*. *Revue du Rhumatisme*. 2018;85(2):132-7.
23. Hayem G, Bouchaud-Chabot A, Benali K, Roux S, Palazzo E, Silbermann-Hoffman O, et al. SAPHO syndrome: a long-term follow-up study of 120 cases. *Semin Arthritis Rheum*. 1999;29(3):159-71.
24. Queiro R, Moreno P, Sarasqueta C, Alperi M, Riestra JL, Ballina J. Synovitis-acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis syndrome and psoriatic arthritis exhibit a different immunogenetic profile. *Clin Exp Rheumatol*. 2008;26(1):125-8.
25. Aljuhani F, Tournadre A, Tatar Z, Couderc M, Mathieu S, Malochet-Guinamand S, et al. The SAPHO syndrome: a single-center study of 41 adult patients. *J Rheumatol*. 2015;42(2):329-34.
26. Ottaviani S. SAPHO. *Appareil locomoteur*. 2016;49(3):1-8.
27. Kahn MF, Hayem F, Hayem G, Grossin M. Is diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible part of the synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome?: Analysis of seven cases. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology*. 1994;78(5):594-8.
28. Kotaki S, Gamoh S, Yoshida H, Noma T, Tsuji K, Akiyama H, et al. SAPHO syndrome of the temporomandibular joint associated with trismus: a case report and review of the literature. *Oral Radiol*. 2020;36(2):197-202.
29. Nguyen MT, Borchers A, Selmi C, Naguwa SM, Cheema G, Gershwin ME. The SAPHO Syndrome. *Seminars in Arthritis and Rheumatism*. 2012;42(3):254-65.
30. Depasquale R, Kumar N, Lalam RK, Tins BJ, Tyrrell PNM, Singh J, et al. SAPHO: What radiologists should know. *Clin Radiol*. 2012;67(3):195-206.
31. Kahn MF, Bouvier M, Palazzo E, Tebib JG, Colson F. Sternoclavicular pustulotic osteitis (SAPHO). 20-year interval between skin and bone lesions. *J Rheumatol*. 1991;18(7):1104-8.

32. Pottecher P, Loffroy R, Estivalet L, Thouant P, Ornetti P, Ricolfi F, et al. Un syndrome SAPHO révélé par une ostéomyélite sclérosante mandibulaire. *Journal de Radiologie Diagnostique et Interventionnelle*. 2014;95(9):876-9.
33. Zhang S, Li C, Zhang S, Li L, Zhang W, Dong Z, et al. Serum levels of proinflammatory, anti-inflammatory cytokines, and RANKL/OPG in synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, and osteitis (SAPHO) syndrome. *Mod Rheumatol*. 2019;29(3):523-30.
34. Hurtado-Nedelec M, Chollet-Martin S, Nicaise-Roland P, Grootenboer-Mignot S, Ruimy R, Meyer O, et al. Characterization of the immune response in the synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome. *Rheumatology (Oxford)*. 2008;47(8):1160-7.
35. Witt M, Meier J, Hammitzsch A, Proft F, Schulze-Koops H, Grunke M. Disease burden, disease manifestations and current treatment regimen of the SAPHO syndrome in Germany: results from a nationwide patient survey. *Semin Arthritis Rheum*. 2014;43(6):745-50.
36. Lambersend C. Etiopathogénie des ostéites maxillaires d'origine odontologique [Thèse pour le diplôme d'Etat de Docteur en Chirurgie Dentaire]. [Nancy]; 2005.
37. Raffoul A. Les ostéites et ostéomyélites infectieuses des maxillaires d'origine non dentaire : une étiologie à ne pas négliger [Thèse pour le diplôme d'Etat de Docteur en Chirurgie Dentaire]. [Strasbourg]; 2016.
38. Chaux-Bodard A-G, Lafon A, Desoutter A, Deneuve S. Ostéites et ostéonécroses des mâchoires. *Médecine buccale*. 2020;67(4):239-54.
39. Baltensperger M, Grätz K, Bruder E, Lebeda R, Makek M, Eyrich G. Is primary chronic osteomyelitis a uniform disease? Proposal of a classification based on a retrospective analysis of patients treated in the past 30 years. *J Craniomaxillofac Surg*. 2004;32(1):43-50.
40. Julien Saint Amand M. Ostéomyélite chronique de la mandibule : étude comparative entre 10 cas d'ostéomyélite chronique primitive et 12 cas d'ostéomyélite chronique secondaire [Thèse pour le diplôme d'Etat de Docteur en Médecine]. [Lyon]; 2016.
41. Fleuridas G, Teysseres N, Ragot J-P, Chikhani L, Favre-Dauvergne E. Ostéomyélite sclérosante diffuse mandibulaire et syndrome de SAPHO. *Revue de Stomatologie et de Chirurgie Maxillo-Faciale*. 2008;103(2):96-104.
42. Moll C, Hernández MV, Cañete JD, Gómez-Puerta JA, Soriano A, Collado A, et al. Ilium osteitis as the main manifestation of the SAPHO syndrome: response to infliximab therapy and review of the literature. *Semin Arthritis Rheum*. 2008;37(5):299-306.
43. Cianci F, Zoli A, Gremese E, Ferraccioli G. Clinical heterogeneity of SAPHO syndrome: challenging diagnose and treatment. *Clin Rheumatol*. 2017;36(9):2151-8.

44. Sulko J, Ebisz M, Bien S, Blazkiewicz M, Jurczyk M, Namyslak M. Traitement de l'ostéomyélite multifocale chronique récidivante de l'enfant par bisphosphonates. *Revue du rhumatisme*. 2020;87(3):204-9.
45. Assmann G, Kueck O, Kirchhoff T, Rosenthal H, Voswinkel J, Pfreundschuh M, et al. Efficacy of antibiotic therapy for SAPHO syndrome is lost after its discontinuation: an interventional study. *Arthritis Res Ther*. 2009;11(5):140.
46. Société Française de Chirurgie Orale. Prise en charge des foyers infectieux bucco-dentaires. *Med Buccale Chir Buccale*. 2012;18(3):251-314.
47. Lescaille G. Contre-indications en implantologie et attitudes concernant les patients à risque. *Réalités cliniques*. 2020;31(2):109-15.
48. Ferreira-Vilaca C. La prise en charge d'un patient atteint du syndrome de SAPHO [Thèse pour le diplôme d'Etat de Docteur en Chirurgie Dentaire]. [Toulouse]; 2019.
49. Mahdoufi R, Zouak A, Dirane K, Abada R, Roubal M, Mahtar M. Les ostéites mandibulaires : prise en charge et résultats. *Annales françaises d'Oto-rhino-laryngologie et de Pathologie Cervico-faciale*. 2014;131(4):122.

# Annexes

## Annexe 1 : formulaire de déclaration CNIL

Sur l'intranet des ordinateurs du CHU, suivre les onglets : « Les services numériques > RGPD – Règlement Général Protection des Données (CNIL) > Déclarer un traitement au DPO »

Mon Espace ▾

[CNIL - Protection des données à caractère personnel](#) > [Déclaration BIS](#) > [Nouvel élément](#)

**Une fois votre déclaration au registre effectuée, veuillez contacter l'équipe DPO à l'adresse [dpo@chru-lille.fr](mailto:dpo@chru-lille.fr) pour présenter votre projet et cadrer sa conformité aux Méthodologies de références homologuées par la CNIL.**

### FORMULAIRE DE DECLARATION CNIL

DECLARANT	
Nom	MASUREL
Prénom	Marine
Adresse Mail	marine.masurel.etu@univ-lille.fr <small>Adresse mail à la laquelle nous pouvons vous recontacter</small>
SERVICE OU POLE RESPONSABLE DE LA MISE EN ŒUVRE	
Pôle Chargé de la mise en Œuvre	POLE SPECIALITES MEDICO CHIRURGICALES HURIEZ SALENGRO CAUMARTIN ▾
Service	SERVICE D' ODONTOLOGIE ▾
Service(s) supplémentaire(s)	
Responsable de la mise en œuvre	Dr Cécile OLEJNIK <small>Promoteur / investigateur pour les travaux de recherche, tuteur pour les thèses, etc.</small>
Responsable du service ou pôle	Dr Laurent NAWROCKI
Téléphone	06 .. .. . <small>numéro auquel nous pouvons vous recontacter</small>
Nom de l'arc	
Téléphone de l'arc	
Adresse mail de l'arc	
TRAITEMENT DECLARE	
Finalité:	Sujet de thèse pour le Diplôme d'Etat en chirurgie dentaire <small>A quelles fins recueillez vous les données ? (Ex : sujet de thèse / sujet de votre recherche)</small>
Personnes concernées par le traitement:	<input type="checkbox"/> Agents <input checked="" type="checkbox"/> Patient du CHRU de Lille <input type="checkbox"/> Patients d'autres établissements <input type="checkbox"/> Autre
Précisez si autre (1):	
Quel est le nombre de personnes concernées par le traitement ?:	Moins de 100 ▾
Les données collectées concernent-elles des mineurs ?:	Non ▾
S'agit-il d'une recherche médicale, d'une thèse ou d'un mémoire ?:	Oui ▾
Si oui, est-ce que la prise en charge habituelle des patients concernés est modifiée?:	Non ▾ <small>(Ex : acte supplémentaire, nouveau questionnaire, etc.)</small>
Si oui s'agit-il d'une étude monocentrique ou multicentrique ?:	Monocentrique ▾
Le CHR est-il promoteur de l'étude ?:	Non ▾
Cette étude rentre-t-elle dans le périmètre d'une méthodologie de référence (MR-00X) ?:	▾ <small>En cas de doute renseignez-vous auprès de votre ARC référent</small>
Est-ce que vous disposez d'un avis CCTIRS et/ou CPP ?:	▾
DONNEES COLLECTEES	
Catégories de données collectées:	<input checked="" type="checkbox"/> Données d'identification( nom, prénom, adresse, initiales, date et lieu de naissance, n° d'inclusion, ...) <input type="checkbox"/> Vie personnelle: Situation familiale, habitudes de vie <input type="checkbox"/> Vie professionnelle: situation professionnelle, formation, etc.. <input type="checkbox"/> Situation économique et financière <input type="checkbox"/> Données de localisation: déplacement, géolocalisation, etc.. <input checked="" type="checkbox"/> Données de santé <input type="checkbox"/> Données génétiques <input type="checkbox"/> NIR, N° de sécurité sociale ou consultation du RNIPP <input type="checkbox"/> Données biométriques: empreintes digitales, contour de la main, rétine, photographie du visage... <input type="checkbox"/> Informations relatives aux infractions, condamnations ou mesures de sûreté <input type="checkbox"/> Informations relatives aux origines raciales ou ethniques, opinions politiques, philosophiques ou religieuses, appartenances sy

	<input type="checkbox"/> Autres: précisez ci-dessous
Si autres, précisez:	
Les données collectées permettent-elles de remonter à la personne ?:	Non, données complètement anor Le terme anonyme signifie qu'il est strictement impossible de remonter à l'identité de la personne même en recoupant les données. L'utilisation d'un numéro d'inclusion ne revient pas à anonymiser les données.
De quel manière recueillez-vous les données ?:	<input checked="" type="checkbox"/> Directement auprès de la personne concernée <input checked="" type="checkbox"/> De manière indirecte (Ex : via une application / un questionnaire, etc...)
Si indirecte précisez la méthode de collecte:	Extraction des données à partir d'un fichier Excel sécurisé
Durée de conservation des données:	2 ans Cette durée doit être limitée dans le temps et être en accord avec la finalité du traitement
Destinataires:	Dr Marie-Hélène VIEILLARD, Dr Cécile OLEJNIK, Marine MASUREL Noms ou profils des personnes ayant besoin d'accéder aux données et/ou de les traiter
<b>SECURITE</b>	
Emplacement des données:	<input checked="" type="checkbox"/> Fichier sur le réseau du CHRU de Lille X:/, N:/, F:/, etc. <input type="checkbox"/> Application au sein du CHRU de Lille <input type="checkbox"/> Fichier / application chez un prestataire: préciser <input type="checkbox"/> Sur un ordinateur / matériel du CHRU de Lille <input type="checkbox"/> Sur un ordinateur / matériel personnel
Si autres précisez:	
Moyens mis en place pour protéger le fichier de traitement:	Fichier avec mot de passe, avec fichier de concordance à accès restreint sur un autre poste CHRU Ex : Mot de passe, chiffrement des données, restriction d'accès réseau
Est-il possible d'accéder aux données depuis l'extérieur du CHR ?:	Non
Les données collectées seront-elles hébergées en interne (CHRU de Lille) ou externalisées (prestataire) ?:	Hébergement interne
<b>ECHANGES DE DONNEES OU INTERCONNEXIONS</b>	
Le traitement déclaré fait-il l'objet d'échanges ?:	Non
Renseignez l'identité des organismes en réception:	
Renseignez l'identité des organismes en émission:	
<b>TRANSFERT DE DONNEES HORS UNION EUROPEENNE</b>	
Existe-t-il des échanges d'information en dehors de l'Union Européenne ?:	Non
Pays du destinataire:	
Pays de l'émetteur:	
<b>DROIT A L'INFORMATION ET DROIT D'ACCES</b>	
Par quels moyens sont respectés les droits des personnes (information, accès/rectification, opposition) ?:	<input type="checkbox"/> Affichage <input type="checkbox"/> Livret d'accueil <input type="checkbox"/> Mention sur le site internet/ Intranet <input type="checkbox"/> Mentions légales sur le questionnaire de collecte <input checked="" type="checkbox"/> Envoi de courrier <input checked="" type="checkbox"/> Autres: précisez ci dessous
Autres moyens d'information:	Envoi de note d'information et de non opposition au patient
<b>Commentaire</b>	
:	
<b>Envoyer</b>	

## **Annexe 2 : attestation de déclaration d'un traitement informatique pour la recherche DEC20-358**



DIRECTION GENERALE

DEPARTEMENT DES RESSOURCES NUMERIQUES

N/Réf : DEC20-358

### **Attestation de déclaration d'un traitement informatique**

*Philippe LECA  
Directeur  
Délégation du Système  
d'Information*

*Guillaume DERAEDT  
Data Protection Officer*

*Secrétariat  
Tél. 03.20.44.44.26  
Fax : 03.20.44.58.59*

Je soussigné, Monsieur Guillaume DERAEDT, en qualité de Data Protection Officer (Délégué à la Protection des Données) du GHT Lille métropole Flandre intérieure atteste que le fichier de traitement ayant pour finalité : **Sujet de thèse pour le Diplôme d'Etat en chirurgie dentaire** mis en œuvre en 2005, a bien été déclaré par Marine MASUREL.

La déclaration est intégrée dans le registre de déclaration normale du Centre Hospitalier Régional Universitaire de Lille.

Attestation réalisée pour valoir ce que de droit.

Fait à LILLE, le 12/08/2021



*Toute correspondance devra être adressée à :*  
CHRU de Lille  
Département Ressources Numériques  
ex Clinique Fontan - 2<sup>ème</sup> étage - rue du Professeur Laguesse  
59037 LILLE Cedex



## Annexe 3 : note d'information



### NOTE D'INFORMATION D'UNE RECHERCHE N'IMPLIQUANT PAS LA PERSONNE HUMAINE

#### « LE DIAGNOSTIC DES OSTEITES DANS LE CADRE DU SYNDROME SAPHO »

Marine MASUREL (externe en 6<sup>e</sup> année de chirurgie dentaire) – Dr Cécile OLEJNIK (directrice de thèse)

Nom du patient : .....	
Prénom du patient : .....	(Ou étiquette du patient)
Date de naissance : .....	

*Cette note d'information a pour objectif de vous expliquer le but de cette étude afin que vous puissiez décider d'y participer ou non. Votre participation à cette étude doit être entièrement volontaire. Prenez le temps de lire cette note d'information et n'hésitez pas à poser des questions à votre médecin pour avoir des renseignements complémentaires.*

#### I. Le but de la recherche

Cette recherche porte sur les critères diagnostiques de l'ostéite primitive des maxillaires. Cette pathologie peut exister seule ou peut être associée à des symptômes évoquant un syndrome SAPHO (Synovite, Acné, Pustulose, Hyperostose, Ostéite). Malheureusement, ce diagnostic est difficile en raison des formes très variées du SAPHO associant tout ou partie des symptômes, et un délai de diagnostic et de prise en charge est souvent observé face à des douleurs dentaires/maxillaires sans étiologie apparente.

L'objectif de ce travail, s'inscrivant dans le cadre de ma thèse en chirurgie dentaire, est de mettre en évidence des éléments permettant d'améliorer le délai au diagnostic et la prise en charge.

#### II. Quelles données sont recueillies, pourquoi et comment ?

Vous êtes sollicité en raison de votre venue dans la consultation pluridisciplinaire avec les Dr MAES, Dr VIEILLARD et Dr OLEJNIK. Cette recherche portera sur l'analyse de données et d'échantillons biologiques recueillies à partir de la date à laquelle vous avez été pris en charge pour une ostéite. Le recueil de données se fera à partir des informations présentes dans votre dossier médical informatique ou papier de l'hôpital de Roger Salengro à Lille.

Les données nécessaires pour la conduite de la recherche comprennent notamment : âge, sexe, date de la prise en charge, antécédents médicaux, histoire de la maladie, symptômes, traitements, examens réalisés, résultats des analyses biologiques.

Si vous acceptez de participer à cette étude, vous n'aurez aucune visite ni aucun examen supplémentaire. Seules vos données médicales et imagerie (radiographies, photographies endobuccales) relevées dans le cadre de votre prise en charge habituelle seront utilisées de manière entièrement anonymisée.

### **III. Confidentialité des données**

Les données médicales recueillies dans le cadre de cette étude seront traitées par le CHU de Lille, représenté par son représentant légal en exercice, en tant que responsable de traitement, sur le fondement de l'intérêt public. Les données vous concernant seront pseudonymisées, c'est-à-dire identifiées par un numéro de code et par vos initiales. Elles seront ensuite transmises aux investigateurs de la recherche et aux coordinateurs.

La base de données ainsi créée sera conservée pendant la durée de réalisation de l'étude et jusqu'à deux ans après la dernière publication des résultats de l'étude. Puis, la base de données sera archivée pendant la durée légale autorisée. Passé ce délai, la base de données ainsi que tous les documents relatifs à la recherche seront définitivement détruits.

Conformément à la loi « informatique et libertés » du 6 janvier 1978 et au règlement (UE) 2016/679 du 27 avril 2016 relatif à la protection des personnes physiques à l'égard du traitement des données à caractère personnel et à la libre circulation de ces données, vous disposez à leur égard d'un droit d'accès, de rectification, d'effacement, de limitation du traitement et du droit de vous opposer au traitement.

Si vous souhaitez exercer vos droits et obtenir communication des informations vous concernant, veuillez-vous adresser au délégué à la protection des données du Groupement Hospitalier Territorial Lille Métropole Flandres Intérieur à l'adresse suivante : [dpo@chru-lille.fr](mailto:dpo@chru-lille.fr).

Si vous considérez que vos droits n'ont pas été respectés, vous avez également la possibilité de saisir la Commission Nationale de l'Informatique des Libertés (CNIL) directement via son site internet : [www.cnil.fr](http://www.cnil.fr).

Vous pouvez accéder directement ou par l'intermédiaire d'un médecin de votre choix à l'ensemble de vos données médicales en application des dispositions de l'article L1111-7 du Code de la Santé Publique. Ces droits s'exercent auprès du médecin qui vous suit dans le cadre de la recherche et qui connaît votre identité.

### **IV. Acceptation et interruption de votre participation**

Vous êtes libre d'accepter ou de refuser de participer à cette recherche sans avoir à vous justifier et sans que la relation de soin existante avec l'équipe médicale ne soit altérée. Dans le cas où vous répondriez par la positive, vous disposez de la possibilité d'interrompre votre participation à tout



moment sans aucun préjudice et sans engager votre responsabilité. Cela n'affectera évidemment pas votre prise en charge.

Vous pourrez poser toutes les questions que vous souhaitez, avant, pendant et après l'étude. Pour toute information complémentaire, vous pouvez vous adresser à MASUREL Marine – 06.95.01.55.33 - [marine.masurel.etu@univ-lille.fr](mailto:marine.masurel.etu@univ-lille.fr) – ou Dr OLEJNIK Cécile – [cecile.olejnik@chru-lille.fr](mailto:cecile.olejnik@chru-lille.fr)

En l'absence d'opposition / refus de votre part sous un délai de 3 semaines après réception de la présente note nous considérerons que vous acceptez de participer à cette recherche

#### **V. Comment cette recherche est-elle encadrée ?**

Le responsable de la recherche, a pris toutes les mesures pour mener cette recherche conformément à la loi française aux dispositions de la Loi Informatique et Liberté applicables aux recherches n'impliquant pas la personne humaine (CNIL loi 78-17 du 6 janvier 1978 modifiée) et européenne (Règlement européen ° 2016/679 relatif à la protection des données - RGPD).

Fait à : Lille      Le : 24/09/2021

**Signature du responsable de la recherche :**

<b>CADRE RESERVE AU RECUEIL DE L'OPPOSITION</b>
<b>NOM/Prénom du patient :</b> .....
<b>Je m'oppose à l'utilisation de mes données dans le cadre de cette recherche « LE DIAGNOSTIC DES OSTEITES DANS LE CADRE DU SYNDROME SAPHO » (Marine MASUREL)</b>
<b><u>Signature</u></b> (Précédée de la mention : Lu, compris et approuvé) :

## **Annexe 4 : tableau d'extraction de données des 14 patients de la consultation pluridisciplinaire de suivi du CHU de Lille**

### **PATIENT A**

Sexe	M
Age <sup>6</sup>	15 ans
ATCD médicaux	RAS
ATCD dentaires	1) Echec d'anesthésie lors de l'avulsion des 1ères molaires pour raison orthodontique (dents cariées et manque de place) 2) Avulsion des 1ères molaires sous AG en juillet 2016 par un chirurgien maxillo-facial 3) Douleurs et tuméfaction apparues 2 mois après les avulsions au niveau du secteur 4 4) Orthodontie
PEC pluridisciplinaire	Mai 2017 = adressé par un médecin généraliste exerçant en maison médicale
Symptômes	1) Mai 2017 = Douleurs récurrentes (pendant 5 jours toutes les 3 semaines) au niveau péri-mandibulaire droit, à la mastication, pas de limitation d'ouverture buccale, voussure osseuse à la palpation sous mandibulaire droite, pas de comblement vestibulaire, pas de lésion de la muqueuse endobuccale suspecte, pas d'hypoesthésie dans le territoire du V3. 2) Douleurs et raideur avec limitation des mobilités du poignet gauche depuis juin 2018 suite à une chute traumatique 3) Disparition des douleurs mandibulaires en décembre 2019
Traitements	- Antalgiques de pallier I - Antibiotiques - AINS - Vitamine D
Réaction au traitement	Douleurs rebelles aux antibiotiques et sensibles aux antalgiques
Examens réalisés	- CBCT - Scintigraphie osseuse (fixation active de la branche horizontale de la mandibule droite) - IRM cervico-faciale - BBS avec CRP élevée <sup>7</sup> et ferritine basse <sup>8</sup> - IRM poignet gauche - Bilan rhumatologique
Diagnosics évoqués	- Ostéomyélite mandibulaire droite (mai 2017) - Ostéite chronique type Garre (écarté par l'aspect osseux) (juin 2017) - Dysplasie fibreuse <sup>9</sup> (juin 2017) - Ostéite chronique récurrente primitive monostotique (décembre 2017) - Maladie de Paget osseuse (décembre 2019)
Perdu de vue	24 décembre 2019 (consultation orthopédie)

<sup>6</sup> Au moment de la 1<sup>ère</sup> venue en consultation pluridisciplinaire au CHU de Lille.

<sup>7</sup> La CRP est une protéine synthétisée par le foie à la suite d'une inflammation de l'organisme.

<sup>8</sup> La ferritine est une protéine de la phase aiguë de l'inflammation qui joue un effet anti-inflammatoire par la séquestration du fer. Son augmentation intervient dans les infections chroniques lors de maladies des systèmes associées à une augmentation de la CRP.

<sup>9</sup> La dysplasie fibreuse est possible à l'âge de 15 ans avec des poussées inflammatoires pendant la période de croissance, et se termine habituellement en fin d'adolescence, vers 18 ans.

**PATIENT B**

Sexe	F
Age	67 ans
ATCD médicaux	Nodule thyroïdien avec euthyroïdie découverte en 2000, ostéopénie densitométrique Depuis 1998, douleurs modérées du pli de l'aine et de la fosse iliaque droite ; lombalgies de rythme mixte associées ainsi que des douleurs du bassin ; atteinte pluri-radiculaire du membre inférieur droit avec un trajet prédominant en L5 mais parfois des douleurs occupant le talon et la face interne de la jambe
ATCD dentaires	1) En septembre 1999, douleur brutale et fugace de la mandibule droite après réfection de l'appareil dentaire maxillaire 2) Début des douleurs à type de brûlures de l'hémiface droite en février 2000 au cours d'un manœuvre d'accouchement d'une brebis ; puis, apparition le lendemain d'une rougeur locale avec une tuméfaction de cette joue. Quelques jours auparavant un rhume a nécessité un traitement par antibiotiques. 3) Début mars 2000, consultation chez son dentiste pour instaurer un traitement anti-inflammatoire ; puis réalisation d'un panoramique dentaire chez ce dentiste qui fait découvrir une sinusite maxillaire. La patiente est adressée. 4) Mi-avril 2000, consultation chez un stomatologue, où un traitement a priori antibiotique a été instauré pendant une quinzaine de jours sans efficacité 5) Début juillet 2000, nouveaux soins dentaires sans aucune amélioration avec mi-juillet extraction dentaire. 6) Mis en évidence de l'ostéite mandibulaire droite et des nodules thyroïdiens entre octobre et janvier au cours de différents examens (radiographies et scanographies)
PEC pluridisciplinaire	22 mai 2003 (début de suivi en chirurgie maxillo-faciale). <i>Données manquantes concernant celui qui a adressé</i>
Symptômes	1) Douleurs à la palpation, poussées infectieuses associées à une rougeur hémimandibulaire droite, et une tuméfaction basi-mandibulaire droite en regard de la réunion parasymphise-branche horizontale 2) Novembre 2004 = Douleurs intenses accompagnées de sueurs profuses, épisode de gonflement et de douleurs du poignet droit, l'ouverture buccale est subnormale, douleurs dorsales lombaires qui se réveillent en même temps que les douleurs mandibulaires, hypoesthésie dans le territoire du V.3 droit qui s'aggrave à chaque poussée inflammatoire, association à une lombo-radiculalgie droite chronique 3) Poussées douloureuses médio palatines 4) Janvier 2010 = violentes douleurs mandibulaires droites et antérieures au niveau de la symphyse mentonnière et de la branche horizontale gauche. Sensation d'extrusion des dents et irradiation vers le maxillaire. Douleurs à la palpation de la partie horizontale de la mandibule, et plus légèrement des articulations temporo-mandibulaires. 5) Adénopathie sous mandibulaire lors des poussées douloureuses
Traitements	- Antibiotiques - Antalgiques de pallier II - Antiépileptique - AINS - Biphosphonates - Corticoïdes - Antalgique de pallier III - Les anti-TNF $\alpha$ sont évoqués mais non proposés en raison d'un risque infectieux
Réaction au traitement	- Inefficacité ou efficacité des antibiotiques modérée dans le temps - Efficacité des antalgiques de pallier II modérée dans le temps - AINS non supportés = rectorragies - Douleurs atténuées par les biphosphonates - Corticoïdes inefficaces et responsables de diarrhées et vomissements - Antalgiques de pallier III non supportés
Examens réalisés	- Curetage de foyer d'ostéite chronique hémimandibulaire droit et libération du nerf mandibulaire droit (mai 2003) - Dentascanner - Biopsie lors du nouveau curetage et avulsion de la dernière molaire

	<p>mandibulaire droite (novembre 2003)</p> <ul style="list-style-type: none"> <li>- Scintigraphie osseuse mandibulaire</li> <li>- BBS avec CRP légèrement élevée et une VS à 12 mm à la 1<sup>ère</sup> heure</li> <li>- Bilan rhumatologique complet</li> <li>- IRM cervico-faciale</li> <li>- Scanner facial</li> <li>- Panoramique dentaire</li> <li>- Bilan radiographique standard (rachis thoraco-lombaire face/profil, bassin de face, hanche face/profil, poignets et mains de face)</li> <li>- IRM du rachis lombaire et des sacro-iliaques</li> <li>- Scintigraphie osseuse corps entier</li> <li>- Electromyographie</li> <li>- Radiographies du rachis cervical face/profil sans anomalie</li> <li>- Scanner des articulations sterno-claviculaires</li> <li>- Densitométrie osseuse (mesure du contenu minéral osseux par absorptiométrie à rayons X)</li> <li>- Examen des potentiels évoqués somesthésiques</li> <li>- Biopsie réalisée en L5-S1 (mai 2006)</li> </ul>
Diagnostics évoqués	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Ostéite chronique primitive hémi-mandibulaire droite (décembre 2004)</li> <li>- Ostéomyélite chronique multi-focal mandibulaire et du sacrum (février 2005) s'inscrivant dans un syndrome</li> <li>- SAPHO (Novembre 2004, puis diagnostic approuvé en février 2005)</li> <li>- Brucellose à forme chronique associant lomboradiculite avec localisation chronique (décembre 2004)</li> </ul>
Spécialistes intervenants	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Consultation de la douleur (adressée en mars 2007, consultation en août 2017)</li> <li>- Consultation en rhumatologie interrompu en 2010 au CHU de Lille et relayée en 2017 près du domicile</li> </ul>
Perdu de vue	13 décembre 2017 (consultation externe rhumatologie)

**PATIENT C**

Sexe	F
Age	81 ans
ATCD médicaux	Antécédents d'hémopathie lymphoïde chronique en surveillance sans traitement, HTA, artérite stade 1 (juin 2006), opérée d'un canal carpien droit, rupture d'un tendon susépineux (mai 2008), hernie intraspongieuse D12 (juillet 2008), ostéopénie (février 2009) avec prise de biphosphonates ACTONEL® jusque mai 2012, fracture du 5 <sup>e</sup> métatarse du pied gauche (septembre 2012)
ATCD dentaires	1) Mars 2017 = consultation chez le médecin généraliste pour une tuméfaction mandibulaire droite survenue quelques jours après l'avulsion d'une dent non douloureuse fracturée 2) Mai 2017 = la patiente est adressée chez un stomatologue
PEC pluridisciplinaire	26 juin 2017 (adressée par une stomatologue)
Symptômes	Episodes d'œdèmes douloureux initialement droits, qui se sont étendus ensuite vers la gauche, avec irradiation auriculaire La symptomatologie s'est atténuée, mais la patiente signale toujours une gêne douloureuse locale avec quelques poussées, sur un mode mineur par rapport aux épisodes antérieurs
Traitements	- Antibiotiques - Oxygénothérapie hyperbare
Réaction au traitement	- Efficacité relative des antibiotiques associés à l'oxygénothérapie hyperbare
Examens réalisés	- Scanner mandibulaire - IRM mandibulaire - Scintigraphie osseuse mandibulaire - BBS - Radiographie panoramique dentaire - Dentascan mandibulaire - Scintigraphie osseuse corps entier
Diagnostics évoqués	- Ostéite chronique mandibulaire (juin 2017) - Maladie de Paget (septembre 2017)
Perdu de vue	17 octobre 2019 (consultation du Dr MAES)

Attention, les antécédents de prise de biphosphonates n'ont été signalés par la patiente que lors du dernier rendez-vous (« on n'a pas de notion de prise de traitement IRO » dans les premiers courriers)

**PATIENT D**

Sexe	M
Age	13 ans
ATCD médicaux	Antécédent de hernie opérée, douleur de la hanche gauche au cours de l'été 2013 (suite à une chute), épilepsie (depuis 2018)
ATCD dentaires	Novembre 2013 = apparition sans cause apparente d'une cellulite chronique mandibulaire gauche (gonflement de la région jugale inférieure gauche avec épisode aigu récurrent) : quatre épisodes entre novembre 2013 et mars 2014, sans douleur ni fièvre Il était en cours de traitement orthodontique, débuté en mars 2014
PEC pluridisciplinaire	20 mars 2014 (adressé par son chirurgien-dentiste)
Symptômes	Douleur à l'épaule dans le passé Cellulite chronique mandibulaire gauche La douleur n'est provoquée que par la palpation de la région osseuse de la table externe en regard des 36 et 37 Poussées inflammatoires mandibulaires avec une tuméfaction péri-mandibulaire gauche et palpation vestibulaire sensible
Traitements	- Antibiotiques - Antalgiques - AINS - Antalgiques de pallier II - Biphosphonate (décembre 2020)
Réaction au ttt	- Efficacité des antibiotiques modérée dans le temps - AINS partiellement efficaces - Efficacité totale des biphosphonates avec disparition des symptômes mandibulaires
Examens réalisés	- Dentascanner - Biopsie exérèse d'une lésion ostéolytique mandibulaire (mars 2014) - Scanner mandibulaire - IRM corps entier - Scintigraphie osseuse corps entier - Avulsion de 3 dents de sagesse
Diagnosics évoqués	- Dysplasie fibreuse ossifiante mandibulaire (mars 2014) - Ostéomyélite chronique récurrente multifocale (avril 2014)
Spécialistes intervenants	Consultation en rhumatologie du CHU de Lille adressée plus proche de son domicile (juin 2014)
Perdu de vue	24 novembre 2020 (consultation externe en rhumatologie)



**PATIENT E**

Sexe	F
Age	57 ans
ATCD médicaux	Antécédents d'œdèmes cycliques, dépression, hypertriglycéridémie, cancer de la thyroïde (thyroïdectomie totale sans geste ganglionnaire associée à un traitement isotopique), hypertension artérielle, ichtyose, syndrome de Raynaud, tendinite de l'épaule traitée par infiltration, syndrome canalaire carpien droit, adénocarcinome rénal (néphrectomie droite qui contre-indique les anti-inflammatoires non stéroïdiens), allergie à l'iode, tabagisme actif à 8 cigarettes par jour (évalué à 20 PA), diabète de type 2
ATCD dentaires	Des douleurs et une gêne en regard de la branche horizontale de mandibule sont apparues en 2009 après extraction de la dent 47 ; puis les dents 43 et 44 ont été extraites, en raison de douleurs, mais ces douleurs persistent après extraction.
PEC pluridisciplinaire	03 février 2010 (urgence mais sans suite) 21 septembre 2011 (adressée par son médecin traitant)
Symptômes	1) 03 février 2010 = Cellulite dentaire séreuse avec œdème au niveau de la dent 44 et élargissement apical. Trigger zone en regard du nerf mentonnier droit et de son émergence mandibulaire, provoquant des douleurs à type de névralgies importantes. Ostéite suspectée. 2) Trismus, tuméfaction péri mandibulaire droite, légère sensibilité à la palpation mandibulaire et édentation mandibulaire droite sans effraction de muqueuse 3) Exacerbation de la tuméfaction ; à la palpation, douleur assez vive au niveau de la basilaire 4) 18 février 2014 = disparition des phénomènes douloureux 5) Mars 2014 = otalgie droite depuis deux mois 6) 22 janvier 2015 = doigt à ressaut du 3 <sup>e</sup> doigt de la main droite
Traitements	- Antibiotiques - Antalgiques de pallier I - Antalgiques de pallier II - Antalgiques de pallier III - Antiépileptique - Anti-dépresseur - Anxiolytiques - Phytothérapie - Biothérapie évoquée (décembre 2019) mais risque d'être contre-indiquée avec la néphrectomie
Réaction au ttt	- Soulagement partiel avec les antalgiques de pallier III - Efficacité des antibiotiques modérée dans le temps - Efficacité des antalgiques de pallier I en IV - Phytothérapie efficace
Examens réalisés	- Scanner mandibulaire - Biopsie osseuse qui conclut à une ostéite simple (mai 2011) - Scintigraphie osseuse corps entier - Bilan rhumatologique - Radiographies des mains /poignets/pieds/sacro_iliaques - Scanner sterno-claviculaire - IRM du rachis dorso-lombaire - BBS avec CRP élevée, VS à 49 mm à la 1 <sup>ère</sup> heure, allèle HLA B27 négatif, et présence de l'allèle de susceptibilité DRB1 04 : 08. - Dentascan - IRM cervico-facial - Scanner cervico- facial - Scintigraphie osseuse mandibulaire - Biopsie osseuse mandibulaire (février 2019)  + 22 passages aux urgences pour les douleurs non soulagées liées à l'ostéite
Diagnostiques évoqués	- Suspicion d'ostéite sur foyer d'extraction dentaire (février 2010) - Dysplasie fibreuse (février 2010) - Ostéomyélite chronique primitive monostotique (février 2010) - Maladie de Paget monostotique (juillet 2011) - SAPHO (septembre 2011)

	+ part neuropathique de la douleur + suspicion de SADAM (dysfonction musculaire avec bruxisme), chez cette patiente nerveuse (douleurs proportionnelles aux périodes de stress)
Spécialiste consulté	Consultation de la douleur (à partir de décembre 2012)
Perdu de vue	NON

**PATIENT F**

Sexe	M
Age	40 ans
ATCD médicaux	Psoriasis cutané (traité occasionnellement), herpès labial
ATCD dentaires	Avulsion de dents de sagesse en 2011 avec complications post-opératoires à type d'alvéolites suppurées mandibulaires gauches à plusieurs reprises en 2017 Episodes douloureux spontanément résolutifs mandibulaires gauches en septembre 2015, et récurrence persistante en 2016 avec une déformation osseuse progressive du côté gauche (réalisation d'une IRM et d'un scanner cervico-faciaux).
PEC pluridisciplinaire	14 novembre 2017 (adressée par son médecin généraliste)
Symptômes	Aspect endobuccal satisfaisant mais tuméfaction péri-mandibulaire gauche avec un os d'aspect hypertrophié Douleurs à type de brûlures, éventuellement en fin de journée. Retentissement psychologique important avec nécessité d'entamer un dossier sur le plan juridique. Arthrose cervicale importante C5 C6 Apparition de douleurs liées au bruxisme avec palpation du muscle ptérygoïdien latéral gauche très douloureuse, craquements à l'ouverture buccale Limitation d'ouverture buccale à environ 2 cm en inter-incisif antérieur. Il y a une asymétrie faciale avec augmentation de volume du côté gauche au niveau de la région angulaire mandibulaire et de la branche montante. Les douleurs sont plus marquées à la palpation des tables externes que des structures musculaires. Le patient décrit des dysesthésies labio-mentonnières gauches
Traitements	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Antibiotiques</li> <li>- Antalgiques de pallier I</li> <li>- Antalgiques de pallier II</li> <li>- AINS</li> <li>- Ostéopathie</li> <li>- Neurostimulation transcutanée</li> <li>- Antiépileptique</li> <li>- Anesthésique</li> <li>- Kinésithérapie oro-maxillo-faciale</li> <li>- Plan de libération occlusale nocturne</li> <li>- Biothérapie par anti- TNF<math>\alpha</math></li> </ul>
Réaction au ttt	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Efficacité modérée dans le temps des antibiotiques</li> <li>- Antalgiques de pallier II inefficaces</li> <li>- Neurostimulation relativement efficace</li> <li>- Séances de kinésithérapie qui ont amélioré les tensions musculaires</li> <li>- Gouttières occlusales mal supportées</li> <li>- Biothérapie par étanercept (ERELZI®) très efficace avec amélioration considérable de la symptomatologie mandibulaire et squelettique (sauf en période de stress)</li> </ul>
Examens réalisés	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Scanner mandibulaire</li> <li>- IRM mandibulaire</li> <li>- Biopsie sous AG pour prélèvement à type de séquestre osseux avec présence de <i>streptocoques anginosus</i> et de rares <i>microcoques luteus</i> (décembre 2017)</li> <li>- Dentascan</li> <li>- Scintigraphie osseuse corps entier</li> <li>- TEP</li> <li>- Scanner du massif facial</li> <li>- BBS</li> <li>- Scintigraphie osseuse mandibulaire</li> <li>- Bilan rhumatologique complet qui conclut à la nécessité de mise en place de biothérapie pour la spondylarthrite axiale</li> <li>- IRM des articulations sacro-iliaques et du rachis lombaire</li> <li>- Radiographie des sacro-iliaques</li> </ul>
Diagnostiques évoqués	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Ostéite mandibulaire (décembre 2019)</li> <li>- Spondylarthrite ankylosante (juillet 2020)</li> </ul>

	- SAPHO (juin 2021)
Spécialiste intervenant	Consultation au centre de la douleur (juin 2019)
Perdu de vue	NON

**PATIENT G**

Sexe	F
Age	68 ans
ATCD médicaux	Antécédents d'hypercholestérolémie, hypothyroïdie, cystocèle opérée, urticaire chronique à 2 reprises spontanément résolutif (majoré à la pression), épisode de 18 mois d'urticaire traité par antihistaminique en 2005
ATCD dentaires	Apparition au cours de l'année 2018 : la 35 a été extraite dans un premier temps puis la 36. La patiente est également édentée de la 37. Depuis la 2 <sup>e</sup> avulsion les douleurs ont persisté avec phénomènes hyperalgiques et œdémateux intermittents
PEC pluridisciplinaire	11 janvier 2019 (adressée par un stomatologue)
Symptômes	Depuis septembre 2012, suivi dermatologique pour une urticaire chronique avec des épisodes de plaques érythémateuses prurigineuses et migratrices associées à des épisodes d'angio-œdème du visage. Actuellement, fond urticarien permanent avec poussée le matin et le soir mais épisodes d'angio-œdèmes non répétés depuis 2 mois. Multiples macules confluentes en plaque au niveau du décolleté du haut du dos et des membres inférieurs. Fond urticarien permanent avec poussée le matin et le soir Ostéite mandibulaire de branche horizontale gauche très douloureuse avec tuméfaction péri-mandibulaire douloureuse à la palpation. Pas de déhiscence muqueuse. Synovite du poignet gauche traitée par infiltration en 2017, et arthrose scapho-trapézienne bilatérale prédominant à droite en 2019 Anomalies C12-L1
Traitements	- AINS - Antibiotiques - Antalgiques de pallier I - Antalgiques de pallier III - Biothérapie par anti-TNF $\alpha$ adalimumab (juillet 2019) puis étanercept (BENEPALI <sup>®</sup> ) - Corticoïdes
Réaction au ttt	- Efficacité des antibiotiques modérées dans le temps - Cytolyse hépatique sous adalimumab - Très bonne efficacité de étanercept puisque l'antibiothérapie a été arrêtée, ainsi que les anti-inflammatoires et les antalgiques avec une bonne tolérance hépatique. Il persiste seulement une petite synovite de la métacarpophalangienne avec des douleurs très modérées.
Examens réalisés	- Scanner mandibulaire - Scintigraphie osseuse corps entier - BBS avec VS à 33mm à la 1 <sup>ère</sup> heure - IRM de bassin et des sacro-iliaques - IRM du rachis complet - Scanner du rachis lombaire - IRM du poignet droit - Radiographie du thorax
Diagnostics évoqués	- Ostéite chronique (janvier 2019) - SAPHO (janvier 2019)
Perdu de vue	NON

**PATIENT H**

Sexe	F
Age	69 ans
ATCD médicaux	Antécédents d'ulcère gastro-duodéal, allergique à l'iode (à type œdème de Quincke), thyroïdectomie, hypertension artérielle, arthrose d'épaule, ostéoporose (traitée par 6 ans de FOSAMAX® 70mg 1x/semaine), ménopause à l'âge de 35 ans sans hormonothérapie substitutive, hernie discale opérée pour lombosciatique, prothèse d'épaule en 2018 sur omarthrose, fracture du coccyx, mauvaise tolérance à plusieurs traitements (LUMIRELAX®, VOLTARENE®, PROFENID®, AUGMENTIN®), sevrage tabagique.
ATCD dentaires	Poussées inflammatoires hémi-mandibulaires postérieures droites depuis début 2017, pouvant durer plusieurs jours, non calmées par les antalgiques de classe I et II, ni par les AINS, ni par les antibiotiques (mis en place par le dentiste). Associé à une limitation modérée de l'ouverture buccale.
PEC pluridisciplinaire	07 novembre 2017 (adressée par son médecin traitant)
Symptômes	Antécédents d'acné dans l'adolescence, manifestation de psoriasis survenu sur le bras droit, pustulose palmo-plantaire bilatérale depuis 10 ans. Trismus, gêne à la mastication et déglutition, craquement articulaire à l'ouverture/fermeture, tuméfaction jugale très douloureuse au contact. Dysesthésies labio-mentonnières droites intermittentes. Palpation de l'hémi-mandibule droite et du muscle masséter toujours très douloureuse. Atteinte hyperostosante chondro-sternale droite sensible à la palpation, lésions cutanées avec pustulose assez diffuse au pied droit Contexte très anxiogène
Traitements	- Anti-dépresseur - Antibiotiques - Antalgiques de pallier I - Antalgiques de pallier II - Biphosphonates (février à mars 2019) - Antiépileptique - Biothérapie par anti-TNF $\alpha$ infliximab (INFLECTRA®) en août 2019, puis étanercept en mars 2020 - AINS - Toxines botuliques (en juin 2021) - Suggestion de débuter ixekizumab (anti-IL17)
Réaction au ttt	- Inefficacité des antalgiques de pallier I et II - Inefficacité des antibiotiques - Inefficacité des biphosphonates - Inefficacité de la biothérapie - Efficacité des antiépileptiques modérée dans le temps - Inefficacité de la toxine botulique
Examens réalisés	- Scintigraphie osseuse corps entier - Radiographie de l'articulation temporo-mandibulaire - Scanner mandibulaire - IRM mandibulaire - Bilan rhumatologique complet - BBS avec absence de l'allèle HLA-B27, VS à 29mm à la 1 <sup>ère</sup> heure, carence en vitamine D - Scanner sterno-claviculaire - Radiographie des pieds/chevilles/épaules/genoux/sacro-iliaques - Biopsie cutanée du pied (février 2018) : aspect morphologique d'une dermatose psoriasiforme - IRM du rachis et des sacro-iliaques - Dentascan - Scanner du massif facial - IRM du massif facial - Radiographie et échographie du poignet gauche
Diagnostiques évoqués	- Maladie de Paget (mai 2017) - SAPHO (novembre 2017, diagnostic validé en mars 2018) - Ostéonécrose sous anti-résorbeurs osseux (mai 2018)

	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Rhumatisme psoriasique (mai 2019)</li> <li>- Douleurs s'inscrivant dans un SADAM étendu (décembre 2020)</li> </ul>
Spécialiste consulté	<ul style="list-style-type: none"> <li>- Dermatologue (février 2018, adressée par la Rhumatologue)</li> <li>- Consultation de la douleur (juin 2019) = douleurs neuropathiques dans un contexte d'ostéite mandibulaire postérieure droite</li> </ul>
Perdu de vue	NON

**PATIENT I**

Sexe	F
Age	54 ans
ATCD médicaux	Antécédents d'hypothyroïdie, ménopause (traitement hormonal substitutif pendant 6 ans), avulsion des dents de sagesse, cure de varices des membres inférieurs, curetage utérin, et coloscopies, ténosynovite du long fléchisseur du pouce droit (en mai 2017)
ATCD dentaires	Douleurs de la mâchoire en 2011 apparues après des extractions dentaires qui ont provoquées des dénudations osseuses et une tuméfaction. Curetage de l'ostéite en novembre 2017.
PEC pluridisciplinaire	16 décembre 2011 (il y a eu des consultations avant dont on ne dispose pas des courriers)
Symptômes	Douleurs de la branche horizontale de la mandibule à gauche. Douleurs au niveau du pouce. Poussées inflammatoires douloureuses variables dans leur survenue (mais semblent déclenchées par les mauvaises conditions météorologiques) Voussure de la région mandibulaire gauche visible au niveau cutané, asymétrie entre les côtés droit et gauche. Sensation de tension musculaire dans les muscles masséters et ptérygoïdiens latéraux de façon bilatérale.
Traitements	- Immunosuppresseur - Phytothérapie - Biothérapie par anti-TNF $\alpha$ étanercept (février 2020) - Antalgiques de pallier I - Antalgiques de pallier II - Proposition d'injection de toxines botuliques de type A
Réaction au ttt	- Efficacité des immunosuppresseurs modérée dans le temps - Efficacité relative de la phytothérapie (curcuma) - Efficacité de la biothérapie sauf sur les douleurs mandibulaires - Intolérance aux antalgiques de pallier II
Examens réalisés	- Scanner du massif facial - Biopsie osseuse mandibulaire gauche (novembre 2011) - Biopsie du tissu synovial du pouce gauche (novembre 2017) - Scintigraphie osseuse corps entier - IRM main droite - BBS - Echographie de la main droite - IRM du rachis thoraco-lombaire et des sacro-iliaques - Dentascan - Bilan rhumatologique complet - Radiographies des mains et poignets, des avants pieds et des chevilles - Echographie des poignets - TEP scanner - Radiographie du thorax
Diagnostics évoqués	- Dysplasie fibreuse (novembre 2011) - Rhumatisme inflammatoire de type psoriasique (juin 2018) - Ostéomyélite mandibulaire (juillet 2019) - SAPHO (novembre 2019)
Perdu de vue	NON



**PATIENT J**

Sexe	F
Age	44 ans
ATCD médicaux	RAS
ATCD dentaires	1) Douleurs mandibulaires gauches depuis le mois de juillet 2007 (sans contexte d'avulsion dentaire), avec apparition intermittente de tuméfactions traitées par antibiothérapie 2) Avulsion d'une dent mandibulaire restante en décembre 2007 par le chirurgien-dentiste. Antibiothérapie + AINS. Amélioration provisoire avant récidence à la fin du traitement 3) Avulsion de plusieurs dents au niveau mandibulaire gauche. Antibiothérapie + AINS. Amélioration transitoire jusqu'à l'arrêt du traitement 4) Syndrome inflammatoire individualisé et patiente adressée pour bilan complet
PEC pluridisciplinaire	18 février 2008
Symptômes	1) Tuméfaction inflammatoire jugale gauche intéressant l'ensemble de l'hémi-mandibule gauche avec une absence de fistulisation. Trismus évalué à 1,5 cm. Adénopathie sous-jugale gauche et droite avec une tuméfaction de la glande sous-maxillaire gauche. 2) Survenue intermittente de poussées inflammatoires lors des contrariétés, avec un trismus plus serré 3) Persistance d'une limitation d'ouverture buccale liée à l'attente osseuse du condyle gauche. Tuméfaction sterno-claviculaire droite non-douloureuse. Adénopathies cervicales médianes volumineuses.
Traitements	- Antibiotiques - Antalgiques de pallier I - Calcium - AINS - Biphosphonates (mai 2019) - kinésithérapie
Réaction au ttt	- Efficacité des antibiotiques modérée dans le temps - Efficacité des AINS mais risque hémorragique accru avec les anticoagulants
Examens réalisés	- Scanner mandibulaire - Bilan rhumatologique complet - BBS avec VS à 22 mm et CRP à 25 mg/L, HLA B27 négatif - Radiographie thoracique - Echographie trans-thoracique - Scintigraphie osseuse corps entier - Biopsie mandibulaire (mars 2008) avec germes commensaux ( <i>staphylocoque capitis</i> et <i>staphylocoque oralis</i> ). - Scanner sterno-claviculaire - Avulsions dentaires (mars 2009) - Dentascan - Biopsie mandibulaire (mars 2010) avec présence de <i>streptocoque oralis</i> et d' <i>heamophilus para influenzae</i> (germes saprophytes de la cavité buccale) - Scanner cervico-facial - Radiographie panoramique dentaire
Diagnostics évoqués	- Ostéite d'origine indéterminée (février 2008) - Ostéite chronique récurrente multi-focale (mars 2008) - SAPHO (avril 2008) - Ostéite sclérosante diffuse mandibulaire (août 2011)
Perdu de vue	Non (dernière consultation le 01 janvier 2021)

**PATIENT K**

Sexe	M
Age	20 ans
ATCD médicaux	RAS
ATCD dentaires	Initialement en septembre 2014 des douleurs et une limitation d'ouverture de bouche ont motivé l'avulsion des dents de sagesse (dont la dent 38). Et, plus de 6 mois après, tuméfaction sous cutanée rémittente, épisodique (juin 2015) sans amélioration
PEC pluridisciplinaire	21 octobre 2015
Symptômes	Tuméfaction sous cutanée au niveau de l'angle gauche rémittente depuis plusieurs mois, certaine sensibilité à la palpation ; tuméfaction angulaire gauche, bleutée, douloureuse à la palpation, non pulsatile, et n'augmentant pas de volume à l'inclinaison latérale gauche ; disparition de la douleur après drainage de la collection des parties molles.
Traitements	- Corticoïdes - Antibiotiques
Réaction au ttt	Efficacité des antibiotiques et corticoïdes
Examens réalisés	- Scanner de base du crâne - Scintigraphie osseuse mandibulaire - BBS - Drainage par pression de la fistule (décembre 2015) - Scanner cervico-facial
Diagnostics évoqués	- Ostéomyélite chronique récurrente multifocale (octobre 2015)
Perdu de vue	20 avril 2018 (consultation avec le Dr MAES = guérison déclarée)

**PATIENT L**

Sexe	M
Age	54 ans
ATCD médicaux	Diabète de type 2
ATCD dentaires	Depuis 2014, poussées inflammatoires mandibulaires gauches survenant toutes les semaines Avulsions début 2015 qui ne modifient pas les symptômes Patient suivi par un stomatologue pour une ostéite chronique avant son arrivée au CHU de Lille
PEC pluridisciplinaire	16 mai 2017 (adressé par un stomatologue)
Symptômes	Poussée inflammatoire avec gonflement mandibulaire gauche, douleur ATM, hypoesthésie labio-mentonnière gauche, rythme hebdomadaire des poussées, adénopathie sous-mandibulaire droite, douleur à la palpation
Traitements	- Antibiotiques - AINS - Antalgiques de pallier I - Antalgiques de pallier II - Corticoïdes
Réaction au ttt	Efficacité des antibiotiques modérée dans le temps
Examens réalisés	- Biopsie osseuse mandibulaire (septembre 2016) avec positivité à <i>staphylococcus epidermus</i> - Scanner du massif facial - BBS avec CRP élevée - Dentascan
Diagnostics évoqués	- Ostéite chronique mandibulaire - Ostéomyélite chronique (septembre 2016) - Dysplasie fibreuse (septembre 2016) - SAPHO (mai 2017)
Perdu de vue	19 mars 2019 (consultation du Dr MAES, puis 3 rendez-vous manqués)

**PATIENT M**

Sexe	F
Age	71 ans
ATCD médicaux	Appendicectomie, fractures des membres supérieurs, amygdalectomie, opérée d'un polype utérin, infarctus d'un genou sous corticothérapie, phénomène de thrombose veineuse après hystérectomie en 2002, diabète de type 2
ATCD dentaires	Début par des douleurs en regard du maxillaire inférieur droit, donc la patiente a rencontré plusieurs praticiens, un traitement par antibiotique a été proposé puis finalement la dent n°42 a été extraite. Douleurs soulagées pendant quelques temps puis réapparition des douleurs au niveau de l'arcade maxillaire, avec différents praticiens rencontrés puis avulsions dentaires (en 2004 toutes les dents sont présentes sur arcade, et en 2019, la patiente est édentée totale au maxillaire) Douleurs cervico-céphaliques et scapulaires depuis 2013, après avulsion de la 42 Il s'y associe un suivi dermatologique pour une éruption cutanée (traitée par FUCIDINE®) et une impression d'otite.
PEC pluridisciplinaire	07 mai 2019
Symptômes	Douleurs mandibulaires diffuses irradiant vers l'oreille, le crâne, la région cervicale postérieure et les épaules, ainsi que des douleurs maxillaires antérieures. Eruption cutanée et impression d'otite Douleurs au genou
Traitements	- Antibiotiques - Oxygénothérapie hyperbare - Homéopathie
Réaction au ttt	Efficacité des traitements modérée dans le temps
Examens réalisés	- Scintigraphie osseuse mandibulaire - Scanner facial - BBS - Dentascan
Diagnostics évoqués	- Ostéite maxillaire chronique - Pathologie osseuse diffuse chronique
Perdu de vue	07 mai 2019 (consultation du Dr MAES)

**PATIENT N**

Sexe	F
Age	74 ans
ATCD médicaux	Diabète de type 2 non insulino-dépendant, HTA, dépression, pneumopathie, hystérectomie totale, fracture d'humérus, fracture de coccyx, arthrose, goutte, canal lombaire rétréci, cirrhose d'origine médicamenteuse avec varices œsophagiennes, ostéoporose traitée par FOSAVANCE® depuis novembre 2013, allergie à la pénicilline (suite à une éruption cutanée au cours des traitements), découverte fortuite de nodules thyroïdiens et d'un goitre
ATCD dentaires	Fin janvier 2014 = avulsion de la dent n°45 (en raison de phénomènes inflammatoires ?) avec évolution défavorable vers l'apparition d'une cellulite mandibulaire droite collectée et hospitalisation en ORL
PEC pluridisciplinaire	16 juillet 2014 (suite à un passage aux urgences)
Symptômes	Episodes de tuméfaction intermittente apparemment modérés de l'hémi-mandibule droite ; hypoesthésie labio-mentonnaire droite, érythème muqueux assez modéré, palpation de la branche horizontale et de la région parasymphysaire droite douloureuse.
Traitements	- Antibiotiques - Antalgiques de pallier I
Réaction au ttt	Antibiotiques mal supportés
Examens réalisés	- Drainage de cellulite sous anesthésie locale (février 2014) - Récidive et drainage de la cellulite sous AG (février 2014) - Scanner mandibulaire - Scintigraphie osseuse corps entier - Bilan rhumatologique complet - Scanner du rachis dorso-lombaire - Electroneuromyographie de Doppler - Echographie d'épaule droite - Radiographie squelette complet - BBS - Dentascan
Diagnosics évoqués	- Ostéonécrose sous biphosphonates (août 2014) - SAPHO (août 2014) - Ostéite chronique primitive (novembre 2014)
Perdu de vue	19 juillet 2016 (consultation du Dr MAES)

Le diagnostic des ostéites des maxillaires dans le cadre du syndrome SAPHO /  
**MASUREL Marine** - p. (78) : ill. (19) ; réf. (49)

**Domaines** : Rhumatologie ; Pathologie buccale ; Pathologie générale

**Mots clés libres** : Pathologie rare, syndrome SAPHO, ostéite chronique, maxillaires, errance diagnostique, prise en charge pluridisciplinaire, biothérapie par anti-TNF $\alpha$

Résumé de la thèse :

Le syndrome SAPHO, acronyme de Synovite Acné Pustulose Hyperostose Ostéite, est une entité pathologique complexe. Par ailleurs, l'ostéite des maxillaires est une pathologie rare mais très invalidante pour le patient. Au travers d'une étude clinique observationnelle rétrospective monocentrique portant sur des patients suivis au CHU de Lille, ce travail montre que le diagnostic de l'ostéite mandibulaire primitive chronique est complexe pour le chirurgien-dentiste. La symptomatologie est déconcertante face à l'absence de facteur étiologique, ce qui aboutit souvent à une longue errance thérapeutique, voire à des interventions invasives, notamment par des avulsions dentaires. Notre étude a montré sur une cohorte de 14 patients que des examens cliniques approfondis et une concertation pluridisciplinaire sont nécessaires pour poser le diagnostic. Lorsque cette ostéite s'inscrit dans un tableau clinique plus complet, comprenant des atteintes cutanées, articulaires et osseuses, on parle de syndrome SAPHO dont le diagnostic est plus caractéristique. Celui-ci est mis en évidence par une association d'atteintes dermatologiques, rhumatologiques et/ou articulaires. L'efficacité de certains traitements comme la biothérapie par anti-TNF $\alpha$  confirme le diagnostic de syndrome SAPHO et ces traitements améliorent souvent la qualité de vie de ces patients.

JURY :

**Président :** Pr Thomas COLARD

**Assesseurs :** Dr Cécile OLEJNIK

Dr Xavier COUTEL

Dr Maxime BEDEZ

**Membre invité :** Dr Marie-Hélène VIEILLARD