

UNE FORME HISTORIQUE D'ACTINOMYCOSE IMPLIQUANT LA CAVITE BUCCALE, LES OS DE LA FACE, L'ORBITE ET LA BASE DU CRÂNE CHEZ UN PATIENT AFRICAIN

S. BADIAGA, D. DEBAT ZOGUEREH, L. ANDRAC-MEYER, P. BROUQUI, G. MAGALON, J. DELMONT

Med. Trop. 2001 ; **61** : 169-172

RESUME • Aujourd'hui, l'ostéite actinomycosique est devenue exceptionnelle dans les pays industrialisés. Les auteurs rapportent une forme historique d'actinomycose importée impliquant la cavité buccale, l'orbite et la base du crâne chez un patient non immunodéficient. Pendant deux ans, divers diagnostics et traitements tant médicaux que chirurgicaux ont été tentés au Sénégal puis en Italie sans succès. Finalement, le diagnostic fut établi à Marseille (France) d'après le résultat d'un examen histologique, suite à une biopsie chirurgicale large, deux ans après le début de la maladie. Le patient a été traité par des doses élevées de pénicilline G pendant quatre semaines, relayées par de l'amoxicilline quotidienne par voie orale durant une année. Le retour trop précoce du patient au Sénégal n'a pas permis de réaliser une chirurgie réparatrice. Les difficultés diagnostiques et thérapeutiques de l'actinomycose sont discutées.

MOTS-CLES • Actinomycose - Osteite - Os de la face - Afrique noire.

CLASSIC CASE OF ACTINOMYCOSIS WITH MOUTH, FACE, ORBIT AND CRANIAL BASE LESIONS IN A PATIENT FROM AFRICA

ABSTRACT • Osteitis due to actinomycosis is now an uncommon clinical entity in industrialized countries. This report describes a classic case of imported actinomycosis involving the buccal cavity, facial bones, orbit and skull base. For two years after the onset, various diagnoses followed by different medical as well as surgical treatments were unsuccessfully attempted first in Senegal then in Italy. Proper diagnosis was finally established in Marseille, France, on the basis of histological findings after extensive surgical biopsy. The patient was treated with high-dose intravenous penicillin G for four weeks followed by daily oral administration of amoxicillin for one year. Surgical reconstruction could not be carried out before the patient's return to Senegal. The pitfalls of diagnosis and treatment of actinomycosis are discussed.

KEY WORDS • Actinomycosis - Osteitis - facial bones - Black Africa.

L'actinomycose est une affection bactérienne rare, parfois aiguë, souvent chronique due à une bactérie saprophyte de la cavité orale mais qui peut devenir pathogène dans certaines conditions. Son diagnostic, habituellement basé sur l'examen microbiologique et/ou histologique, est difficile (1). Nous rapportons une forme historique d'ostéite

actinomycosique de la cavité buccale, des os de la face, de l'orbite et de la base du crâne dont le diagnostic n'a été établi que deux années après le début de la maladie par un examen histologique.

OBSERVATION

Un patient africain, âgé de 32 ans, est adressé en mars 1994 au Service des maladies tropicales et infectieuses de l'Hôpital Nord à Marseille, pour des lésions délabrantes du massif facial, de l'orbite droite, de la partie supérieure de la cavité buccale et du nasopharynx, qui évoluaient depuis deux années. L'interrogatoire ne relevait aucun antécédent médico-chirurgical antérieur à mars 1992, époque où habitant au Sénégal, il avait noté l'apparition d'une tumeur indolore de la région parotido-temporale droite. A cette période, le patient était également fébrile et se plaignait d'une asthénie sévère. Il n'y avait aucune histoire connue de traumatisme facial ou d'autres facteurs pouvant expliquer le développement d'une telle

• *Travail du Service des Maladies Tropicales et Infectieuses (S.B., Chef de Clinique-Assistant ; D.D.Z., Assistant Associé ; J.D., Professeur des Universités-Praticien Hospitalier (PU-PH), Chef de Service ; P.B., PU-PH) Hôpital Nord, du Service d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques (L.A.-M., Maître de Conférence des Universités-PH) Hôpital Nord, et du Service de Chirurgie Plastique et Réparatrice (G.M., PU-PH, Chef de Service) Hôpital de la Conception, Marseille, France.*

• *Correspondance : D. DEBAT ZOGUEREH, Service des Maladies Tropicales et Infectieuses, Hôpital Nord, Chemin des Bourrellys, 13015 Marseille, France • Fax : +33 (0) 04 91 96 89 05 • email : zogdeb@yahoo.com •*

• *Article reçu le 31/07/2000, définitivement accepté le 17/16/2001.*

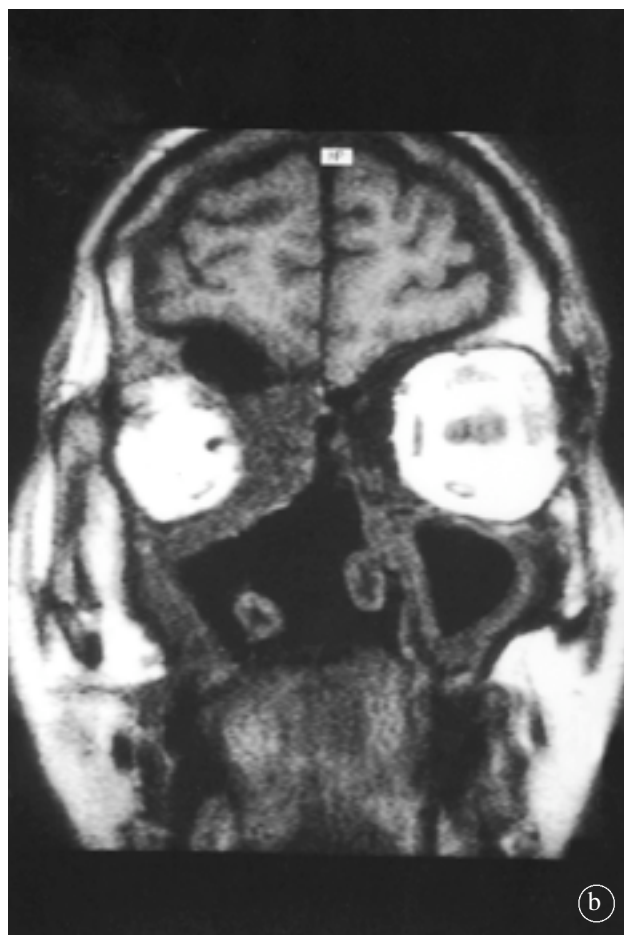
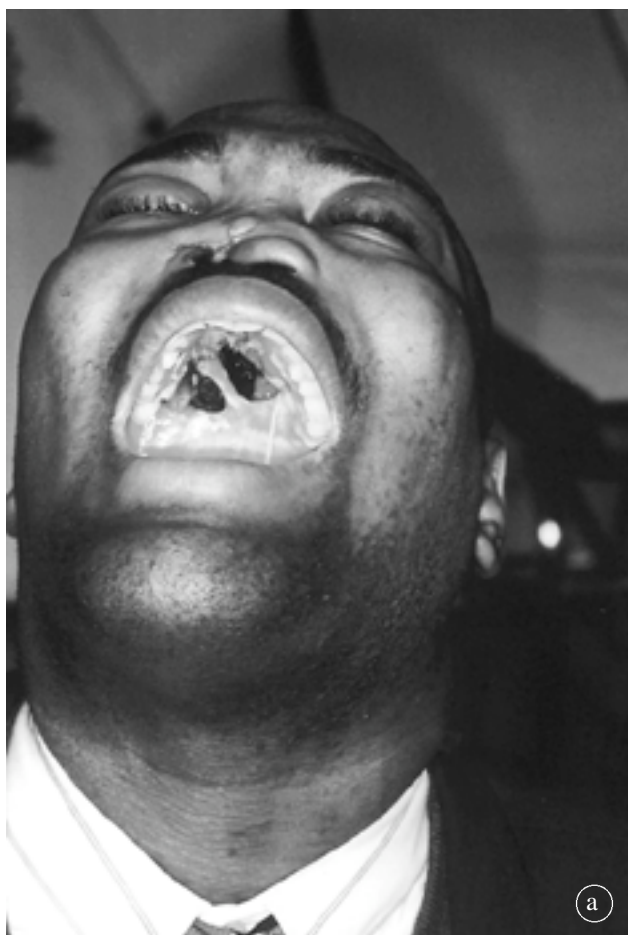


Figure 1 - Lésions de la face. a) destruction du nez, du palais osseux et du nasopharynx ; ptosis et cécité de l'œil droit ; b)IRM du massif facial et du crâne avec injection de gadolinium (séquence pondérée T1) montrant : une lyse diffuse intéressant le cornet inférieur droit, les cornets moyens et la cloison nasale, la partie postérieure de la paroi interne du sinus maxillaire droit, les cloisons de la masse latérale droite de l'ethmoïde, la partie postéro-latérale droite du palais osseux et l'apophyse ptérygoïde à droite ; un épaissement muqueux inflammatoire au niveau des sinus maxillaires ; un processus inflammatoire tissulaire partiellement nécrosé dans la partie médiane de l'orbite droite ; une péri-ostéite droite de la grande et de la petite aile droite du sphénoïde ; une atrophie du globe oculaire droit.

lésion. Deux semaines plus tard, apparaissaient deux lésions nodulaires du côté droit, respectivement du rebord supérieur de l'orbite et de l'aile du nez. Ces deux lésions allaient évoluer rapidement vers la fistulisation, laissant sourdre un pus sanglant. Aucun diagnostic n'étant fait au Sénégal, le patient s'est rendu en Italie pour des investigations diagnostiques complémentaires. Initialement, il reçut des bétalactamines avant que les diagnostics de leishmaniose cutanéomuqueuse et de mycétome soient évoqués. Aucune confirmation étiologique n'était obtenue par des biopsies chirurgicales et le patient fut traité sans résultat par des antimoniés puis du fluconazole. Plusieurs interventions chirurgicales à visée évacuatrice puis réparatrice furent aussi réalisées avant que le patient se présente à Marseille.

Le patient était en bon état général et n'avait aucun signe clinique ou symptôme évoquant une infection systémique. Par contre, il existait une destruction du nez et du palais osseux (remplacé par une prothèse en Italie six mois auparavant). De nombreuses sécrétions purulentes et nauséabondes endo-buccales, une cécité, un ptosis droit (Fig. 1a) et une paralysie des nerfs crâniens, de la deuxième à la onzième paire, évoquaient une atteinte de la base du crâne.

L'imagerie par résonance magnétique (IRM) du massif facial et du crâne après injection de gadolinium (séquence pondérée T1) montrait :

- une lyse diffuse intéressant le cornet inférieur droit, les cornets moyens et la cloison nasale, la partie postérieure de la paroi interne du sinus maxillaire droit, les cloisons de la masse latérale droite de l'ethmoïde, la partie postéro-latérale droite du palais osseux et de l'apophyse ptérygoïde à droite ;

- un épaissement muqueux inflammatoire en cadre au niveau des sinus maxillaires, un processus tissulaire inflammatoire partiellement nécrosé (petit hématome) occupant la partie médiane de l'orbite à droite ;

- une péri-ostéite droite de la grande aile ainsi que de la petite aile du sphénoïde ;

- une atrophie du globe oculaire (Fig. 1b).

Les analyses biologiques courantes étaient normales. Les sérologies (leishmaniose, syphilis, VIH) et le test cutané tuberculinique étaient négatifs. Une biopsie chirurgicale large fut pratiquée. La culture des biopsies pour les bactéries, les champignons et les mycobactéries n'était pas contributive. L'examen histologique du prélèvement biopsique montrait des nappes de tissu nécrotique au

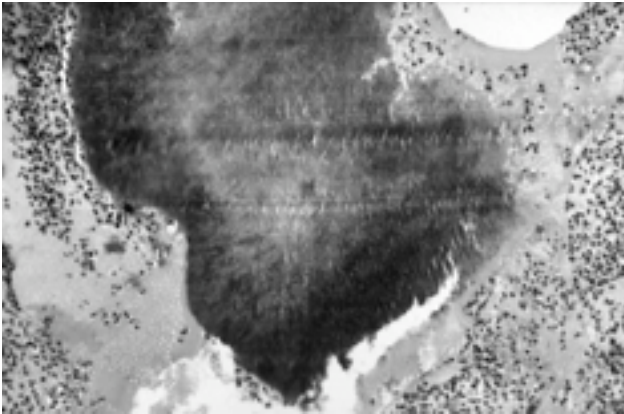


Figure 2 (Examen histologique montrant des nappes nécrotiques et inflammatoires au sein desquelles sont visualisées des «grains» hématéiphiles constitués de filaments bactériens de 1 micron de diamètre (coloration au PAS ; objectif x 40).

sein desquelles étaient visualisés des grains mesurant 0,3 à 3 mm de diamètre, hématéiphiles. Ces grains étaient constitués de filaments bactériens de 1 micron de diamètre, positifs avec les colorations Gram et PAS (Fig. 2), suggérant le diagnostic d'actinomyose. Le patient a été traité avec de la pénicilline G par voie intraveineuse, 4 millions toutes les 6 heures pendant quatre semaines, avant de sortir de l'hôpital avec un traitement par amoxicilline par voie orale, 3 g par jour durant une année. La chirurgie plastique de reconstruction du massif facial devait être tentée au bout d'un an de traitement médicamenteux, mais ne put être réalisée à Marseille car le patient est retourné auparavant au Sénégal.

DISCUSSION

Sur le plan épidémiologique.

Les sujets âgés de 20 à 60 ans (notre patient avait 32 ans) sont les plus touchés avec un sex ratio de 3 hommes pour 1 femme (2). Parfois, des enfants sont concernés (2, 3). La maladie survient chez des sujets avec une mauvaise hygiène bucco-dentaire et/ou une notion de traumatisme oral (en particulier, extraction dentaire) ou une tare (immunodépression, corticothérapie, diabète, insuffisance surrénalienne, néoplasie). Chez notre patient, l'interrogatoire ne relevait aucune notion d'antécédents médicaux, d'extraction dentaire et aucun document sur l'état de sa dentition antérieure n'était disponible. En revanche, comme la plupart des sujets de confession musulmane et originaire de l'Afrique de l'Ouest, il n'est pas exclu qu'il ait été un utilisateur régulier de cure-dents fins qui auraient pu provoquer des micro-traumatismes buccaux.

Dans la littérature, de nombreuses localisations d'actinomyose ont été rapportées (1, 4-7). Toutefois, la localisation cervico-faciale, similaire au cas décrit, prédomine avec une fréquence de 11 % à 97 % (moyenne 55 %) (8). Dans les pays industrialisés, l'actinomyose, en particulier dans sa localisation cervico-faciale, est devenue très rare en raison d'une bonne hygiène buccale, de soins dentaires de qualité et de l'usage répandu de l'antibioprophylaxie pour des actes

chirurgicaux (5). Par contre, elle est encore relativement fréquente dans les pays en développement, surtout en zone rurale, et le cas sévère que nous rapportons en témoigne. Ceci résulte de l'insuffisance de l'éducation des populations concernant l'hygiène bucco-dentaire et d'une déficience fréquente de la prise en charge médicale.

Sur le plan clinique.

Le mode de découverte de l'actinomyose cervico-faciale est très variable, rendant ainsi son diagnostic clinique difficile (1). Il peut s'agir d'une tuméfaction au niveau du maxillaire inférieur ou d'une induration de la région parotidienne, infiltrée dans les plans superficiels (1, 6). L'évolution de la forme chronique, où la sclérose prédomine, est lente, caractérisée par un abcès cutané indolore et l'absence de fistule cutanée chez des patients apyrétiques (9). Un début brutal, une progression rapide de la fièvre et une tuméfaction fluctuante, douloureuse, fistulisante (9) sont des signes en faveur d'une forme aiguë, comme chez notre patient. Souvent, les lésions demeurent localisées aux parties molles (6). Cependant, des formes où l'infection s'est propagée à l'os contigu aboutissant à une ostéomyélite (4, 6) et secondairement aux méninges et aux poumons ont été rapportées (6). Quant à l'actinomyose du système nerveux central (SNC), les rares cas rapportés dans la littérature sont dus à une atteinte de la base du crâne se traduisant par des paralysies de nerfs crâniens (10), comme dans le cas présenté. Une autre manifestation neurologique exceptionnelle de l'actinomyose est l'abcès actinomycosique intracrânien révélé par des signes et symptômes neurologiques (4, 9). Néanmoins, les tableaux cliniques de l'actinomyose du SNC sont difficiles à distinguer de ceux des infections pyogéniques des structures cérébro-méningées ou de la moelle épinière (8).

Sur le plan diagnostique.

Avec la coexistence de lésions délabrantes intéressant à la fois la cavité buccale, le nez, le nasopharynx, l'orbite et la base du crâne, le cas d'actinomyose bucco-facio-crâniale rapporté est unique à notre connaissance. Son diagnostic a été très difficile et les errements rencontrés en témoignent. Souvent, le diagnostic de l'actinomyose peut être posé avec un degré élevé de certitude devant l'association de tableaux cliniques évocateurs (7, 9), et d'arguments histologiques avec l'observation dans les prélèvements de grains actinomycosiques ou grains soufrés *sulfur granules*, agglutination des bactéries au sein de l'organisme lorsqu'elles deviennent pathogènes, dans le pus ou les prélèvements biopsiques après colorations spécifiques et dont les caractéristiques étaient similaires à ceux de notre patient. Des colorations, parfois difficiles à effectuer, telles celles de Gomori-Grocott, de Whartin Stany, de Brown et Brenn, de MacCallen-Goodpasture ou avec un acide p-aminosalicylique (8), permettent d'éliminer certaines maladies cliniquement proches, notamment bactériennes (nocardiose, lèpre lépromateuse, tuberculose osseuse, noma), parasitaires (leishmaniose cutanéomuqueuse), mycosiques (mycétome fongique, botriomyose, mucormycose) et néoplasiques. Si certaines de ces colorations sont de réalisa-

tion souvent difficile en milieu tropical, une simple coloration avec le Giemsa peut par contre permettre d'objectiver ces bactéries filamenteuses. Un deuxième élément histologique fondamental est constitué par les follicules développées autour des grains, d'aspect macroscopique blanc ou jaune avec une couronne de polynucléaires altérés et d'histiocytes (granulome inflammatoire) et circonscrite par une importante sclérose.

Sur le plan microbiologique.

Actinomyces est une bactérie asporulée, Gram positif, anaérobie avec des filaments de 1 micron de diamètre enchevêtrés. Cette apparence filamenteuse enchevêtrée est caractéristique de l'actinomycose si l'on est bien sûr qu'il ne s'agit pas de fibre isolée. La confirmation définitive du diagnostic est basée sur l'identification de la bactérie. Quatorze espèces d'*Actinomyces* sont connues dont 6 peuvent être à l'origine de maladies chez l'homme (*Actinomyces israelii*, *Actinomyces bovis*, *Actinomyces meyeri*, *Actinomyces naeslundii israelii*, *Actinomyces odontolyticus* et *Actinomyces gerencseniae*), mais l'espèce-type le plus souvent responsable est *Actinomyces israelii* (8). Cependant, les *Actinomyces* sont des bactéries fragiles dont la culture est difficile. Chez ce patient, toutes les cultures microbiologiques pratiquées durant 2 ans au Sénégal et en Italie ainsi que celles réalisées en France sont restées négatives. L'échec de la culture bactérienne dans l'actinomycose pourrait être dû à la croissance lente, 2 à 3 semaines, des *Actinomyces* requérant des conditions anaérobies strictes (7-9), à la prédominance d'une flore saprophyte qui inhibe la culture des *Actinomyces* (7, 9), à une réalisation imparfaite des prélèvements et à l'usage antérieur d'un traitement antibactérien. Par conséquent, le diagnostic microbiologique est rarement fait et le diagnostic positif de l'actinomycose est le plus souvent suggéré par les antécédents (notion d'extraction dentaire, traumatisme buccal), les signes cliniques et l'examen des coupes histologiques.

Sur le plan du traitement et de l'évolution.

Des lésions mutilantes sévères dues à l'actinomycose cervico-faciale étaient fréquentes avant l'ère des antibiotiques. La chirurgie était le seul traitement et la répétition des incisions en raison des récurrences des abcès aboutissaient à des cicatrices disgracieuses (9). Cette situation est probablement celle de ce patient qui a subi plusieurs interventions au Sénégal et en Italie. Actuellement, les lésions sévères, comme dans le cas présenté, ne sont plus observées que dans les pays en développement où les patients ont un accès limité à une médecine autre que la médecine traditionnelle (5). Le traitement de l'actinomycose nécessite généralement des doses élevées de pénicilline G par voie intraveineuse relayées par une antibiothérapie prolongée pendant 6 à 12 mois avec de la pénicilline G ou de l'amoxicilline. L'échec des premiers traitements antibiotiques chez ce patient pourrait être expliqué par : une dose et/ou par une durée insuffisante(s) de l'antibiothérapie, la pénétration médiocre des antibiotiques en raison de la réponse infla-

toire intense produite par l'actinomycose, de la nécrose tissulaire et de la fibrose entourant l'abcès (6). Donc dans certains cas (abcès intracrânien, abdominal ou pelvien), une association de traitement médicamenteux et de débridement chirurgical étendu peut s'avérer nécessaire. Pour l'actinomycose cervico-faciale, le seul traitement antibiotique précoce et prolongé est souvent suffisant (9). Par ailleurs, une bonne hygiène bucco-dentaire demeure le seul moyen adéquat pour prévenir l'apparition d'une actinomycose.

CONCLUSION

Si l'actinomycose est devenue exceptionnelle dans les pays industrialisés, elle est par contre relativement fréquente dans les pays en développement. Lorsque les signes ne sont pas typiques ou sont méconnus, cette maladie peut être source de nombreux problèmes diagnostiques pour le clinicien, retardant ainsi une prise en charge thérapeutique adaptée. L'actinomycose importée devrait être évoquée parmi les hypothèses diagnostiques des lésions délabrantes bucco-facio-crânielles. La confirmation du diagnostic repose sur des examens microbiologiques avec des colorations spécifiques souvent difficiles à réaliser en milieu tropical, hormis la simple coloration de Giemsa qui peut permettre d'objectiver les bactéries filamenteuses, et histologiques (nécessité de biopsie chirurgicale large). Un traitement antibiotique précoce, adapté et prolongé par voie intraveineuse puis orale est indispensable afin d'éviter la survenue de lésions mutilantes.

REFERENCES

- 1 - SA' DO B., YOSHIURA K., YUASA K. et Coll. - Multimodality imaging of cervicofacial actinomycosis. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 1993; **76** : 772-782.
- 2 - KLOTZ G., PILLER P., FLESCHE J., HERMAN D. - Actinomycose cervico-faciale. A propos de deux localisations atypiques. *Ann. Otolaryngol. Chir. Cervicofac.* 1989; **106** : 105-107.
- 3 - FOSTER S.V., DEMMLER G.J., HAWKINS E.P., TILLMAN J.P. - Pediatric cervicofacial actinomycosis. *South. Med. J.* 1993; **86** : 1147-1150.
- 4 - LAD S.D., CHANDY M.J. - Cranio-facial actinomycosis. *Br. J. Neurosurg.* 1991; **5** : 361-370.
- 5 - SULLIVAN T.J., AYLWARD G.W., WRIGHT J.E. - Actinomycosis of the orbit. *Br. J. Ophthalmol.* 1992; **76** : 505-506.
- 6 - OZAKI W., ABU BAKER A.O., SOTERANOS C., PATTERSON G.T. - Cervicofacial actinomycosis following sagittal split rasmus osteotomy : a case report. *J. Oral Maxillofac. Surg.* 1992; **50** : 649-652.
- 7 - CHOBOUT J.C., MANIERE C., BADET J.M. et Coll. - L'actinomycose en ORL. A propos d'un cas localisé aux fosses nasales. *Ann. Otolaryngol. Chir. Cervicofac.* 1994; **111** : 292-294.
- 8 - SMEGO R.A., FOGLIA G. - Actinomycosis. *Clin. Infect. Dis.* 1998; **26** : 1255-1263.
- 9 - SEBALD M. - Actinomycoses à bactéries anaérobies. *Encycl. Med. Chir. - Maladies Infectieuses* 1995, 8-023-A10, 6 p.
- 10 - CHAKROUN M., BATTIKH R., BOUZOUAIA N. et Coll. - Actinomycose de la base du crâne. *Med. Mal. Inf.* 1995; **25** : 947-949.