

## Case report

### L'actinomyose des maxillaires: à propos de 4 cas



#### *Actinomycosis of the maxillary sinus: about 4 cases*

**Houda Mounji<sup>1, &</sup>, Soufiane Elhatimi<sup>1</sup>, Malika Benfdil<sup>1</sup>, Youssef Rochdi<sup>1</sup>, Hassan Nouri<sup>1</sup>, Abdelaziz Raji<sup>1</sup>**

<sup>1</sup>Service d'ORL et Chirurgie Cervico-Faciale, CHU Mohammed VI Marrakech, Marrakech, Maroc

<sup>&</sup>Auteur correspondant: Houda Mounji, Service d'ORL et Chirurgie Cervico-Faciale, CHU Mohammed VI Marrakech, Marrakech, Maroc

Received: 22 Feb 2020 - Accepted: 26 Feb 2020 - Published: 11 Mar 2020

Domain: Otolaryngology (ENT)

Mots clés: Actinomyose, os maxillaire, histopathologie

#### Résumé

L'actinomyose est une affection bactérienne spécifique, rare et non contagieuse qui est sous diagnostiquée et qui a un grand polymorphisme clinique pouvant atteindre tous les organes. L'objectif de ce travail est de discuter à travers quatre observations d'actinomyose des maxillaires, les aspects cliniques, diagnostiques, thérapeutiques et évolutifs de cette affection. L'âge moyen de nos patients était 52 ans avec un sexe ratio de 1. Les facteurs de risque étaient le diabète dans un cas, extractions dentaires multiples, et antécédents de radio-chimiothérapie pour cancer du sein. Sur le plan clinique, le mode de découverte était très variable: tuméfaction douloureuse mandibulaire dans un cas et endobuccale dans un autre cas, écoulement purulent endobuccal dans un cas et une gêne à la mastication dans ce dernier cas. La confirmation diagnostic était obtenue par l'examen histo-pathologique dans tous les cas. Le traitement reposait sur la pénicillino-thérapie précoce, adaptée et prolongée avec une durée qui variait entre 6 mois et 1 an. La possibilité d'une actinomyose cervico-faciale devrait être envisagée en présence de toute tuméfaction intra- ou extra-orale d'étiologie indéterminée. Le pronostic est le plus souvent favorable. Par ailleurs, une bonne hygiène bucco-dentaire demeure le seul moyen adéquat pour prévenir l'apparition d'une actinomyose.

**Case report | Volume 2, Article 97, 11 Mar 2020 | 10.11604/pamj-cm.2020.2.97.21862**

Available online at: <https://www.clinical-medicine.panafrican-med-journal.com/content/article/2/97/full>

© Houda Mounji et al PAMJ - Clinical Medicine (ISSN: 2707-2797). This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution International 4.0 License (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.



## Abstract

*Actinomycosis is a rare under-diagnosed specific and non-contagious bacterial disease characterized by a wide clinical polymorphism. In fact it can affect any organ. We here report four cases of actinomycosis of the maxillary sinus in order to describe the clinical, diagnostic, therapeutic and evolutionary features of this disease. The average age of our patients was 52 years with a sex ratio of 1. Risk factors included diabetes in one case, multiple dental extractions and a history of radio-chemotherapy for breast cancer. From a clinical point of view, the mode of detection was very variable: painful mandibular swelling in one case and intrabuccal in another case, purulent intrabuccal discharge in one case and difficulties in chewing in the latter case. Diagnosis was confirmed by histopathological examination in all cases. Treatment was based on early suitable and prolonged penicillin therapy, with a duration ranging between 6 months and 1 year. The diagnosis of cervicofacial actinomycosis should be suspected in patients with intra- or extra-oral swelling of indeterminate etiology. Prognosis is most often favorable. In addition, good oral hygiene is the only suitable means to prevent actinomycosis.*

**Key words:** Actinomycosis, maxillary bone, histopathology

## Introduction

---

L'actinomycose est une affection bactérienne spécifique, rare et non contagieuse atteignant préférentiellement la sphère cervico-faciale. Il s'agit d'une infection purulente et granulomateuse qui est due à des bactéries anaérobies Gram positif: les actinomycètes. L'actinomycose survient le plus souvent par contiguïté à partir d'un foyer dentaire [1-3]. Il s'agit d'une infection spécifique et primaire des tissus mous et rarement de l'os. L'ostéite actinomycosique touche souvent la mandibule [4]. L'examen histopathologique reste la clé du diagnostic. Le traitement repose sur la pénicillino-thérapie et la place de la chirurgie est limitée. La prophylaxie repose sur une bonne hygiène bucco-dentaire. Nous rapportons quatre observations d'actinomycose des maxillaires.

## Patient et observation

---

**Observation 1:** patiente âgée de 55 ans diabétique type 1. Clinique: tuméfaction douloureuse de la mandibule qui s'est ulcérée par la suite avec mise à nu de l'os mandibulaire. L'examen clinique trouve une patiente édentée et une tuméfaction du rebord alvéolaire en regard de la région molaire gauche (D36) avec une ulcération endobuccale et mise

à nu de l'os mandibulaire (Figure 1). Orthopantomogramme a montré un foyer d'ostéolyse en regard de l'ulcération. La tomodensitométrie faciale a objectivé une ostéite de la branche horizontale mandibulaire gauche avec des îlots condensant bilatéraux (Figure 2). La biopsie de l'ulcération avec l'examen anatomopathologique a montré des grains actinomycosiques sans signes de malignité. Le traitement a consisté en pénicilline A à la dose de 2g/j par voie orale pendant 6 mois. Un contrôle mensuel a été réalisé et l'évolution a été marquée par un recouvrement de l'os.

**Observation 2:** patiente âgée de 44 ans, ayant dans ses antécédents plusieurs extractions dentaires qui s'est présentée pour une tuméfaction endobuccale qui s'est ulcérée par la suite. L'examen clinique trouve un mauvais état bucco-dentaire, une ulcération au niveau du processus palatin du maxillaire étendu au bord externe de la lame horizontale droite de l'os palatin (Figure 3). La radiographie panoramique dentaire a montré de plusieurs chicots et caries dentaires. La biopsie a retrouvé une muqueuse infiltrée par un processus tumoral sans signes cytologiques évidents de malignité avec une greffe actinomycosique. Le traitement: pénicilline A 2g/j pendant une année (la patiente a pris 2g/j les premiers 6mois et 1g/j les 6 mois suivants). L'évolution a été marquée par un recouvrement de l'ulcération.

**Observation 3:** patient âgée de 52 ans, ayant dans ses antécédents une radio-chimiothérapie, et traitement par les biphosphonates pour un cancer du sein métastatique. Elle a consulté pour une haleine fétide, gêne à la mastication et une altération de l'état général. L'examen clinique trouve un mauvais état bucco-dentaire, un aspect de gingivite avec nécrose de la gencive et mise à nu de la branche horizontale mandibulaire gauche. La tomodensitométrie osseuse maxillaire montre un aspect d'ostéite mandibulaire. Ce tableau radio-clinique a fait d'abord évoquer une ostéonécrose d'abord carcinomateuse, un curetage chirurgical avec lambeau de recouvrement a été réalisé. Une première histopathologie a montré un aspect d'inflammation chronique granulomateuse non spécifique sans signes de malignité. L'évolution a été marquée par la destruction du lambeau avec nécrose large. Devant l'aggravation des lésions et l'apparition de la nécrose du plancher buccale, un nouveau prélèvement a été réalisé. L'étude anatomopathologique a alors montré un granulome non spécifique entouré de micro-abcès centrés par des amas de germes d'aspect feutré et arborescent Gram+ et PAS+ (Periodic Acid Schiff) correspondant à l'Actinomyces (Figure 4). La prise en charge a consisté en un curetage osseux associé à une antibiothérapie par l'amoxicilline 2g/j pendant 6 mois. L'évolution était marquée par la restitution *ad integrum* des lésions muqueuses et une recouverture de l'os.

**Observation 4:** patient âgé de 60 ans sans antécédents pathologiques particuliers. Elle a consulté pour un écoulement endobuccal purulent avec trismus et altération de l'état général. L'examen clinique trouve une fistule au niveau de la joue gauche avec issue d'un liquide purulent, une tuméfaction dure au niveau du nez s'étendant à la région sous orbitaire droite et un mauvais état bucco-dentaire avec mise à nu de l'os maxillaire. La tomodensitométrie faciale a montré des lésions ostéolytiques avec infiltration des parties molles adjacentes intéressant les os de l'hémiface gauche (Figure 5). L'examen anatomopathologique a montré un tissu osseux nécrosé avec la présence d'amas bactériens compatible avec

une actinomycose. Le patient a été traité par de l'amoxicilline-acide clavulanique. Le patient a présenté des épigastalgies raison pour laquelle il a arrêté le traitement. Par la suite, son état s'est aggravé et il a refusé de consulter. Le patient est décédé probablement par une pneumopathie.

## Discussion

---

Il s'agit d'une infection rare dont la fréquence est de 5/100000. L'actinomycose survient en général chez l'adulte entre 20 et 60 ans mais des cas ont été rapportés chez l'enfant [2]. L'atteinte de la femme est moins fréquente que celle de l'homme avec un sex ratio de 3. De nombreuses localisations d'actinomycose ont été rapportées. Toutefois, la localisation cervico-faciale prédomine avec une moyenne de 55% [5]. L'atteinte osseuse est une complication rare, elle représente entre 1 et 15% des cas d'actinomycose cervico-faciale. Elle touche le plus souvent la mandibule [6]. 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, néoplasie [5]. Les biphosphonates ont été récemment impliqués dans des tableaux d'ostéonécrose des maxillaires [7]. Le principal agent causal des actinomycoses chez l'homme est l'*Actinomyces israelii*. Cette bactérie est un bacille Gram positif, anaérobie stricte [4]. Le diagnostic est souvent porté avec un retard du fait du polymorphisme clinique de la maladie et de la difficulté d'identification du germe. Le diagnostic bactériologique est difficile. La confirmation définitive du diagnostic est basée sur l'identification de la bactérie sur les coupes histologiques [5].

Le diagnostic différentiel fait surtout discuter des lésions malignes (sarcome, lymphome malin, récurrence d'un carcinome malpighien), une radionécrose osseuse, et plus rarement certaines mycoses nécrosantes comme la mucormycose, l'histoplasmosse ou l'aspergillose. Le traitement est toujours

médical, parfois complété par une chirurgie [2]. L'antibiotique de choix est la pénicilline. La place de la chirurgie dans le traitement de l'actinomycose est réduite et limitée au drainage d'une forme en voie de fistulisation, à l'exérèse d'une forme pseudo tumorale enkystée et non contrôlée par le traitement médical, à l'exérèse de séquestres osseux et à l'excision de tissus nécrosés [8]. La plupart des auteurs se basent sur la clinique pour la surveillance des malades [1, 3, 4,5]. Le pronostic est le plus souvent favorable après l'institution d'une antibiothérapie prolongée. La guérison est obtenue dans environ 90% des cas d'actinomycose bien traités [9]. La prophylaxie est importante et consiste à traiter les foyers infectieux chroniques dentaires, amygdaliens ou salivaires, d'améliorer les conditions d'hygiène buccodentaire et de bénéficier de soins dentaires de qualité [2].

## Conclusion

---

L'actinomycose est une infection rare causée par des bacilles Gram positifs anaérobies nommés *Actinomyces*. La possibilité d'une actinomycose cervico-faciale devrait être envisagée en présence de toute tuméfaction intra- ou extra orale d'étiologie indéterminée. Le pronostic est le plus souvent favorable. Par ailleurs, une bonne hygiène bucco-dentaire demeure le seul moyen adéquat pour prévenir l'apparition d'une actinomycose.

## Conflits d'intérêts

---

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

## Contributions des auteurs

---

Tous les auteurs ont lu et approuvé la version finale du manuscrit

## Figures

---

**Figure 1:** ulcération et mise à nu de l'os mandibulaire au niveau du rebord alvéolaire en regard de la région molaire gauche (D36)

**Figure 2:** TDM faciale en coupe horizontale montrant une ostéite de la branche horizontale mandibulaire gauche avec des îlots condensants bilatéraux

**Figure 3:** photo de la patiente bouche ouverte. Un mauvais état bucco-dentaire avec une ulcération au niveau du bord externe de la lame horizontale droite de l'os palatin

**Figure 4:** aspect au microscope optique (×20) avec coloration PAS de grains actinomycosiques.

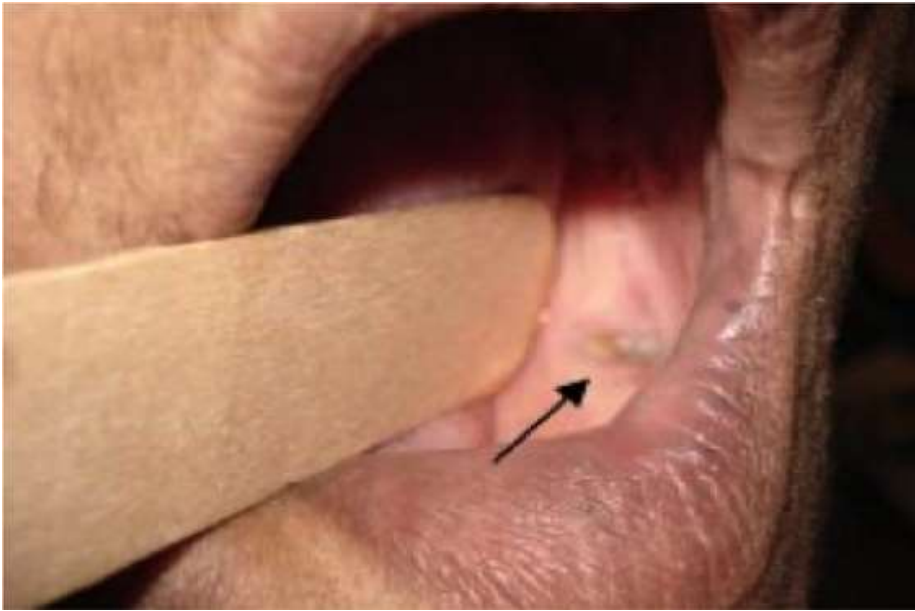
**Figure 5:** TDM faciale en coupe coronale montrant des lésions ostéolytiques avec infiltration des parties molles adjacentes intéressant les os de l'hémiface gauche

## Références

---

1. Driss N, Lahmar I, Amari F, Toumi M, Mighri K, Sfar N *et al.* Actinomycose en ORL: à propos de 4 cas. Journal français d'oto-rhino-laryngologie. 2003;52(3):149-153.
2. Serrano E, Percodani J. Actinomycose cervicofaciale. Encycl Med Chir Oto-rhino-laryngologie. 1995;20-372-A-10.

3. Mettler S, Brunner F, Lambrecht J. Actinomycose cervico-faciale: présentation de deux cas cliniques. Rev Mensuelle Suisse Odontostomatologie. 2009;119(3):246-251. **Google Scholar**
4. Musso S, Liolos I, Hofman V, Odin G, Dellamonica P, Hofman P. Une infection buccale à ne pas sous-estimer: l'actinomycose. Ann Pathol. 2003;23(2):161-4. **Google Scholar**
5. Badiaga S, Zoguereh D, Andrac-Meyer L, Brouqui P, Magalon G, Delmont J. Une forme historique d'actinomycose impliquant la cavité buccale, les os de la face, l'orbite et la base du crâne chez un patient africain. Med Trop. 2001; 61:169-172. **Google Scholar**
6. Miller M, Haddad A. Cervicofacial actinomycosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1998; 85:496-508. **Google Scholar**
7. Woeller A, Gering A, Brix M, Bettega G, Lebeau J. Ostéonécrose des maxillaires sous biphosphonates: cinq cas. Rev Stomatol Chir Maxillofac. 2006;107:417-422. **Google Scholar**
8. Moghimi M, Salentijn E, Debets-Ossenkop Y, Karagozoglu KH, Forouzanfar T. Treatment of cervicofacial actinomycosis: A report of 19 cases and review of literature. Med Oral Pathol Oral Cir Bucal. 2013;18(4):e627-32. **PubMed | Google Scholar**
9. Bononi F, Iazzetti A, Saba da Silva N. Pediatric cervicofacial actinomycosis - case report and review of the literature. J Pediatr. 2001; 77(1):52-54. **PubMed | Google Scholar**



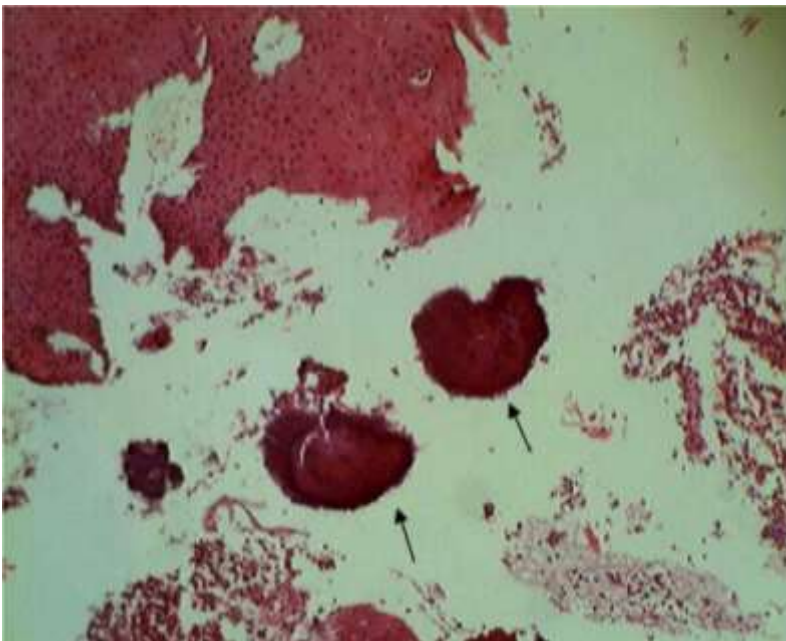
**Figure 1:** ulcération et mise à nu de l'os mandibulaire au niveau du rebord alvéolaire en regard de la région molaire gauche (D36)



**Figure 2:** TDM faciale en coupe horizontale montrant une ostéite de la branche horizontale mandibulaire gauche avec des îlots condensants bilatéraux



**Figure 3:** photo de la patiente bouche ouverte un mauvais état bucco-dentaire avec une ulcération au niveau du bord externe de la lame horizontale droite de l'os palatin



**Figure 4:** aspect au microscope optique ( $\times 20$ ) avec coloration PAS de grains actinomycosiques



**Figure 5:** TDM faciale en coupe coronale montrant des lésions ostéolytiques avec infiltration des parties molles adjacentes intéressant les os de l'hémiface gauche