



Association syndrome de Sjögren et spondyloarthrites : étude de 40 observations au service de rhumatologie de l'hôpital national Ignace Deen de Conakry, Guinée
Association of Sjögren's syndrome and spondylitis: study of 40 observations in the rheumatology department of the Ignace Deen national hospital in Conakry

Condé Kaba^{1,3}, Garba Mahaman Salissou²,
Garba Idé², Touré Moriba¹, Barry Abdoulaye¹,
Cissé Fodé Abass³

Correspondance

Condé Kaba

Courriel : condekba95@gmail.com

Summary

Context and objective. The coexistence of Sjögren's syndrome (SS) and spondyloarthritis (SpA) is scarce in Sub-Saharan Africa. The objective of our study was to describe the clinical and paraclinical characteristics of this association.

Methods. This was a retrospective study carried out in the Rheumatology Department of the Ignace Deen CHU (Conakry, Guinea) over a period of 2 years between January 2017 and December 2019. The diagnosis of SS was retained in accordance with the American-European Consensus Criteria (CETA). The diagnosis of SpA met the criteria for Assessment of SpondyloArthritis International Society (ASAS). **Results.** Forty observations of Sjögren's syndrome associated with spondyloarthritis were collected with a mean age of 49 years with extremes at 23 and 66 years, 32 (80 %) patients were women. Inflammatory low back pain was found in 55 % of cases, dry mouth in 85% of cases. HLA-B 27 phenotyping was performed in 29 patients, 16 patients were HLA B27 positive (40 %) while anti SSA / SSB antibodies were performed in 28 patients, 12 (30 %) had anti SSA / SSB positive. Sacroiliitis was present in 30 (75%) patients. The accessory salivary gland biopsy showed grades III / IV according to the Chisholm and Masson classification in 33 (82%) cases. **Conclusion.** The combination of SpA and SS is rare. It is more frequent in women (80%). The systematic search for sicca syndrome in SpA could make the diagnosis easier and the characterization of the group of patients better in sub-Saharan Africa.

Keywords: Sjögren syndrome, spondyloarthritis, Conakry

Received: May 17th, 2020

Accepted: January 21th, 2021

1 Service de Rhumatologie, hôpital national Ignace, Deen, Conakry – Guinée

2 Service de Rhumatologie, centre hospitalier régional de Maradi-Niger

3 Service de Neurologie, hôpital national Ignace Deen, Conakry - Guinée

Résumé

Contexte et objectif. La coexistence du syndrome de Sjögren (SS) et de la spondyloarthrite (SpA) est exceptionnelle en Afrique subsaharienne. L'objectif de la présente étude était de décrire les caractéristiques cliniques et paracliniques de cette association. **Méthode.** Il s'agissait d'une étude documentaire couvrant la période de janvier 2017 à décembre 2019, réalisée dans le service de rhumatologie du CHU Ignace Deen. Le diagnostic de SS était retenu en accord avec les critères de consensus Americano European. Le diagnostic de SpA répondait aux critères d'ASAS. **Résultats.** Quarante observations de syndrome de Sjögren associé au spondyloarthrites ont été colligées d'âge moyen de 49 ans avec des extrêmes (23 et 66 ans), 32 (80%) des patients étaient des femmes. La sécheresse buccale était rencontrée dans 85% des cas. Seize patients sur 29 étaient HLA B27 positifs (55,17%) tandis que les anticorps anti SSA/SSB étaient réalisés chez 28 patients, 12 (30%) avaient les antis SSA/SSB positifs. Une sacro-iliite était présente chez 30 (75%) patients. La biopsie des glandes salivaires accessoires montrait les grades III/IV selon la classification de Chisholm et Masson dans 33 (82%) des cas. **Conclusion.** L'association SpA et SS est rare. Elle est plus fréquente chez les femmes (80%). La recherche systématique du syndrome sec au cours des SpA pourrait rendre le diagnostic plus facile et permettre de mieux caractériser ce groupe de patient en Afrique subsaharienne.

Mots-clés : syndrome de Sjögren, spondyloarthrite, Conakry

Reçu le 17 mai 2020

Accepté le 21 janvier 2021

Introduction

Le syndrome de Sjögren (SS) est une maladie auto-immune caractérisée par une infiltration lymphocytaire des glandes exocrines, préférentiellement des glandes salivaires et lacrymales (1). Il peut être classé en deux types, à savoir le SS primitif en l'absence d'autres maladies auto-immunes et le SS secondaire est associé à d'autres maladies auto-immunes telles que la polyarthrite rhumatoïde et le lupus érythémateux disséminé (1-2). Bien que la survenue concomitante de SS et de maladies auto-immunes soit bien connue, la coexistence de SS et de la spondyloarthrite (SpA) est exceptionnelle dans la littérature (3-5).

La présente étude avait pour objectif de combler cette lacune, en décrivant la coexistence SS et SpA observée dans notre contrée.

Méthodes

Il s'agissait d'une étude documentaire portant sur le SS ayant été suivi pendant une période de deux ans (janvier 2017 et décembre 2019), dans le service de Rhumatologie du CHU Ignace Déen (Guinée Conakry). Le diagnostic de SS était retenu en accord avec les critères de consensus Americano European Group (AECG) (6). Le diagnostic de SpA répondait aux critères d'ASAS (7-8). Les données suivantes ont été colligées : démographiques (l'âge, le genre), cliniques : l'atteinte axiale et périphérique, le syndrome sec buccal, oculaire, ORL et cutané. Biologiques (la protéine C-réactive). Le typage HLA-B27 a été effectué par le typage ADN du HLA – B27 par PCR-SSP (Sequence-Specific Primers). Le prélèvement sanguin est de 4 cc de sang veineux se fait sur tube hépariné. La recherche des anticorps antinucléaires (ANA) et l'identification des anticorps anti-ENA (notamment les anti-SSA et anti-SSB) étaient réalisés en immunofluorescence sur cellules Hep-2. La sacro-iliite radiographique (IRM), l'atteinte cervicale et lombaire selon le score mSASSS (modified Stoke Ankylosing Spondylitis Spinal Score). La biopsie des glandes salivaires accessoires selon la classification de Chisholm et Masson. L'activité de la maladie a été évaluée selon le bath Ankylosing Spondylitis Functional Index (BASFI), le bath Ankylosing Spondylitis Disease Activity Index (BASDAI), l'EULAR Sjogren's Syndrome Patient Reported Index (ESSPRI) et l'EULAR Sjögren's syndrome disease activity index (ESSDAI).

Résultats

Quarante observations de syndrome de Sjögren associé au spondyloarthrites ont été colligées (tableau 1) d'âge moyen 49 ans avec des extrêmes (23 et 66 ans), 32 (80%) patients étaient des femmes.

Tableau 1. Caractéristiques de tous les patients

Tous les patients	(n=40)
Sexe, femme, n (%)	32 (80)
Age moyen au moment du diagnostic (ET ±) (ans)	49 (± 8)
Délai moyen au diagnostic (ans)	6
Lombalgie inflammatoire, n (%)	22 (55)
Atteinte périphérique, n (%)	36 (90)
Talalgie, n (%)	10 (25)
Uvéite, n (%)	9 (22,5)
Sacro-iliite, n (%)	30 (75)
HLA B27, n (%) des données disponibles	16 (40)
SSA/SSB, n (%) des données disponibles	12 (30)
Score BASDAI moyen	3,04
Score BASFI moyen	4,63
Score ESSPRI moyen	5
Score ESSDAI moyen	4
BGSA grade III ou IV, n (%) des données disponibles	33 (82)

BASDAI: bath ankylosing spondylitis disease activity index; BASFI: Bath Ankylosing Spondylitis Functional Index; ESSPRI: EULAR Sjogren's Syndrome Patient Reported Index; ESSDAI: Eular Sjögren Syndrome Disease Activity index. N: nombre

Tableau 2. Caractéristiques du syndrome sec : buccal, oculaire, ORL

Syndrome sec buccal	Effectifs (%)
Sècheresse, n (%)	35 (85)
Absence de salive, n (%)	11 (27,5)
Ulcération buccale, n (%)	7 (17,5)
Ingestion fréquente d'eau, n (%)	18 (45)
Aliments collants à la bouche, n (%)	16 (40)
Douleur buccale, n (%)	5 (12,5)
Perte dentaire, n (%)	16 (40)
Parodontite, n (%)	8 (20)
Parotidomégalie, n (%)	6 (15)
Flux salivaire non stimulé (< 1,5 mL)	27 (67,5)
Syndrome sec oculaire	
Sensation corps étranger, n (%)	37 (92)
Brûlure oculaire, n (%)	19 (52,5)
Prurit, n (%)	9 (22,5)
Rougeur oculaire, n (%)	8 (20)
Modification acuité visuelle, n (%)	7 (17,5)
Photosensibilité, n (%)	16 (40)
Absence de larme, n (%)	8 (20)
Modification mouvement des paupières, n (%)	4 (10)
Test de Shirmer, n (%)	26 (65)
Break up time, n (%)	12 (30)
Syndrome sec ORL	
Sècheresse nasale, n (%)	20 (50)
Douleur pharyngée, n (%)	12 (30)
Baisse audition, n (%)	3 (7,5)
Toux sèche, n (%)	7 (17,5)

La lombalgie inflammatoire était retrouvée dans 55% des cas, l'atteinte périphérique était présente chez 90 % des patients, la sécheresse buccale et la sensation de corps étranger dans les yeux, dans respectivement 85 et 92 % des cas (tableau 2). Le phénotypage HLA B 27 a été réalisé chez 29 patients, 16 patients étaient HLA-B27 positifs (55,17 %) tandis que les anticorps anti SSA/SSB étaient réalisés chez 28 patients, 12 (30 % des cas) avaient les antis SSA/SSB positifs. Une sacro-iliite était présente chez 30 (75 %) des patients. La biopsie des glandes salivaires accessoires montrait les grades III/IV selon la classification de Chisholm et Masson dans 33 (82 %) des cas.

Discussion

Dans la présente étude, l'association SS et SpA a été observée avec prédilection chez les femmes 32/40 (80 %) et une prépondérance de l'atteinte périphérique (92 %). Pareille association SS et SpA (5) est exceptionnelle dans la littérature. En effet, la plupart d'auteurs ont trouvé une fréquence de cette association inférieure à 10 % (3, 7, 9-10). Seuls Di Fazano *et al.* (10) dans une étude comparative, ont découvert que le SS était plus fréquent chez les femmes avec SpA (31,7 %) que dans le groupe contrôle (2,9 %). Cette constatation évoque la possibilité d'un terrain génétique particulier (3). En effet, les groupes HLA DR04.01 et DQ 03.01 semblent plus fréquents dans les cas de spondyloarthrite associée à un syndrome de Sjögren (11). L'hypothèse de phénomènes dysimmunitaires pouvant être liée à une identité moléculaire partielle avec certains agents infectieux, a été évoquée. Cependant existe-t-il un lien entre une origine bactérienne des spondyloarthrites et une probable origine virale dans le Sjögren ? (12). Dans les deux cas, ce lien pourrait être une porte d'entrée muqueuse, par le rôle des IgA (muqueuses oropharyngées dans le Sjögren et muqueuses intestinales dans les spondyloarthrites, 12-13). La fréquence des anticorps anti-nucléaires (ANA) semble plus élevée chez les patients avec une association SS et SpA (14-16). Toutefois le rôle de l'ANA dans la

pathogenèse de la SpA n'est pas encore clair (17-19).

Outre leur rareté, l'originalité de nos observations tient au fait qu'il s'agit des premiers cas décrits à notre connaissance dans la littérature africaine de l'association SS et SpA. D'autres études sont sans doute nécessaires pour mieux caractériser ce groupe de patients en ASS. Cette prépondérance féminine est difficile à élucider mais serait due aux dysfonctionnements immunitaires ou hormonales qui sont probablement plus fréquents chez la femme.

La présente étude présente des points faibles dont il faut tenir compte dans l'interprétation des résultats. Ils sont inhérents à la petite taille de l'échantillon ne conférant pas assez de puissance statistique, à la difficulté d'accès aux examens complémentaires liés à leur coût onéreux notamment le bilan immunologique (anti-SSA, SSB, HLA- B27) et l'IRM des sacro-iliaques.

Conclusion

L'association SpA et SS est rare. Elle est plus fréquente chez les femmes (80 %). La recherche systématique du syndrome sec au cours des SpA pourrait rendre le diagnostic plus facile et permettre de mieux caractériser ce groupe de patient en Afrique subsaharienne.

Déclaration de liens d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

Contribution des auteurs

Tous les auteurs ont contribué équitablement à la réalisation de ce travail.

Références

1. Borchers AT, Naguwa SM, Keen CL, Gershwin ME. Immunopathogenesis of Sjogren's syndrome. *Clin Rev Allergy Immunol.* 2003; **25**: 89-104.
2. Nair JJ, Singh TP. Sjogren's syndrome: Review of the aetiology, Pathophysiology & Potential therapeutic interventions. *J Clin Exp Dent.* 2017; **9** (4): 584-589.
3. Kobak S, Kobak AC, Kabasakal Y, Doganavsargil E. Sjogren's syndrome in patients with ankylosing spondylitis. *Clin Rheumatol* 2007; **26**: 173-175.

4. Tosun M, Karkucak M, Capkin E, Cakirbay H, Guler H, M Topbas, *et al.* Coexisting ankylosing spondylitis and Sjogren's syndrome: a case report. *Rheumatol Int* 2005; **25**: 478–480.
5. Sàfrány E, B. Pazár B, Csöngéi V, Jàromi L, Polgàr N, Sipeky C, *et al.* Variants of the IL23R Gene are Associated with Ankylosing Spondylitis but not with Sjögren Syndrome in Hungarian Population Samples. *Scandinavian Journal of Immunology* 2009; **70** : 68–74.
6. Varoquier C, Salmon JH, Sibilia J, Gottenberg JE (2013) Critères diagnostiques du syndrome de Gougerot-Sjögren. *Rev Rhum Monogr* **80**: 20–5. doi: 10.1016/j.monrhu.2012.11.00.
7. Rudwaleit M, van der Heijde D, Landewé R, Listing J, Akkoc N, Brandt J *et al.* The development of assessment of spondyloarthritis international society (ASAS) classification criteria for axial spondyloarthritis. *Ann Rheum Dis* 2009 ; **68** (6): 777–783.
8. Rudwaleit M, van der Heijde D, Landewé R, Akkoc N, Brandt J, Braun L *et al.* New ASAS classification criteria for peripheral spondyloarthritis. *Ann Rheum Dis* 2009; **68**: 127.
9. Brandt J, Rudwaleit M, Eggens U, Mertz A, Distler A, Sieper J, *et al.* Increased frequency of Sjögren's syndrome in patients with spondyloarthropathy. *J Rheumatol* 1998; **25**:718–724.
10. Di Fazano CS, Grilo RM, Vergne P, Coyral D, Inaoui R, Bonnet C, *et al.* Is the relationship between spondyloarthropathy and Sjögren's syndrome in women coincidental? A study of 13 cases. *Jt Bone Spine.* 2002; **69**: 383–387.
11. Yıldızker Keriş E, Yaman SD, Demirağ MD, Haznedaroğlu Ş. Temporomandibular joint findings in patients with rheumatoid arthritis, ankylosing spondylitis, and primary Sjögren's syndrome. *J Investig Clin Dent* 2017 ; **8** (4). doi: 10.1111/jicd.12255.
12. Tapinos NI, Plihronis M, Tzioufas AG, Moutsopoulos HM. Sjögren's syndrome: autoimmune epithelitis. New York : Kluwer Academic/Plenum Publishers ; 1999. p. 127-34.
13. Wendling D, Bidet A, Guidet M. Intestinal permeability in ankylosing spondylitis. *J Rheumatol* 1990; **17** : 114-115.
14. Laversuch CJ, Collins DA, Charles PJ, Bourke BE Sulphasalazine induced autoimmune abnormalities in patients with rheumatic disease. *Br J Rheumatol* 1995; **34**: 435–439.
15. Price EJ, Venables PJ. Drug induced lupus. *Drug Saf* 1995; **12**:283–290.
16. Braun J, Sieper J. Ankylosing spondylitis. *Lancet* 2007; **369**: 1379–1390.
17. Goransson LG, Herigstad A, Tjensvoll AB, Harboe E, Mellgren SI, Omdal R. Peripheral neuropathy in primary sjogren syndrome a population-based study. *Arch Neurol* 2006; **63** (11): 1612-1615.
18. Omdal R. Peripheral neuropathy in primary Sjogren syndrome. a population-based study. *Arch Neurol* 2006; **63** :1612–1615.
19. Clayman MD, Reinertsen JL. Ankylosing spondylitis with subsequent development of rheumatoid arthritis, Sjögren's syndrome, and rheumatoid vasculitis. *Arthritis Rheum* 1978; **21**: 383-389.

Voici comment citer cet article: Kaba C, Salissou G, Idé G, Moriba T, Abdoulaye B, Abass C. Association syndrome de Sjögren et spondyloarthrites : étude de 40 observations au service de rhumatologie de l'hôpital national Ignace Deen de Conakry, Guinée. *Ann Afr Med* 2014; **14** (2): e4100-e4103.