



Imen Mehri Turki<sup>1</sup>

### Correspondance

Imen Mehri Turki

Courriel : turkiyemen@yahoo.fr

Téléphone : +216 94789008

### Summary

Osteoma is a benign osteogenic lesion with slow and insidious growth rarely observed in the mandible. We report a new and rarely described localization of a peripheral osteoma of unusual size, while showing the interest of piezosurgery in the conservative excision. This technique is less aggressive without morpho-functional sequelae. However, it is important to perform an adequate maxillofacial examination and a correct radiological reading in order to detect this type of lesion early. The diagnostic certainty is always histological.

**Keywords:** Peripheral osteoma, mandible, piezosurgery, Gardner's syndrome

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v15i4.10>

Received: February 5<sup>th</sup>, 2022

Accepted: August 1<sup>st</sup>, 2022

1 Unité de Stomatologie Chirurgie Maxillofaciale Réparatrice et Esthétique. Hôpital Universitaire Mohamed Tahar Maamouri. Mrezgua 8000, Nabeul, Tunisia

### Résumé

L'ostéome est une lésion ostéogénique bénigne à croissance lente et insidieuse rarement observée au niveau de la mandibule. Nous rapportons une nouvelle localisation assez rarement décrite, d'un ostéome périphérique de taille inhabituelle, tout en montrant, l'intérêt de la piézochirurgie dans l'exérèse conservatrice. Cette technique est moins agressive sans séquelles morpho-fonctionnelles. Il est toutefois important de réaliser un examen maxillo-facial adéquat et une lecture radiologique correcte, afin de dépister précocement ce type de lésion. La certitude diagnostique est toujours histologique.

**Mots-clés :** Ostéome périphérique, mandibule, piézochirurgie, syndrome de Gardner

<https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v15i4.10>

Reçu le 5 février 2022

Accepté le 1<sup>er</sup> août 2022

### Introduction

L'ostéome est une lésion osseuse bénigne, caractérisée par la prolifération d'os mature compact et spongieux. Trois types d'ostéome sont décrits : l'ostéome périphérique qui prend naissance au niveau du périoste, l'ostéome central qui naît de l'os médullaire (l'endoste) et l'ostéome extra-squelettique, nommé « choristoma » qui se développe dans les tissus mous extra-squelettiques (1).

L'ostéome périphérique de la région cranio-faciale atteint le plus souvent les sinus maxillaires. La région orbitaire, le conduit auditif externe et les processus ptérygoïdes constituent des localisations de moindre fréquence. Quant aux maxillaires (sinus exclus), l'ostéome reste une entité rare où l'angle et le bord inférieur mandibulaire constituent le site de prédilection (2).

Nous décrivons un cas d'ostéome périphérique de localisation rare et de taille inhabituelle tout en discutant les caractéristiques clinico-radiologiques et les hypothèses étiopathogéniques de cette pathologie. Des caractéristiques épidémiologiques de l'ostéome périphérique mandibulaire sont aussi revues selon les données de la littérature actuelle. Nous mettons aussi en exergue l'apport et les avantages de la piézochirurgie.

### Observation clinique

Il s'agissait d'une patiente âgée de 36 ans, sans antécédents pathologiques notables en particulier infectieux ou traumatique de la région faciale, qui a consulté pour une tuméfaction indolore endobuccale. Cette lésion est apparue à l'adolescence et a augmenté progressivement de taille jusqu'à devenir gênante à la parole, à l'alimentation et empêche une hygiène buccale correcte. L'examen endobuccal a révélé la présence d'une tuméfaction, exophytique pédiculée dure et indolore à la palpation, située au niveau du versant lingual de l'os alvéolaire en regard de la deuxième prémolaire inférieure jusqu'à la dent de sagesse inférieure gauche. La muqueuse recouvrant cette tuméfaction était saine. Par ailleurs, les dents en regard de cette lésion étaient saines, non mobiles et de vitalité conservée (Figure 1).



**Figure 1.** Visualisation de la tuméfaction dans la bouche

L'examen tomодensitométrique a objectivé une masse pédiculée implantée au niveau de l'os alvéolaire, ayant une densité spongieuse, bien limitée avec un liseré de condensation périphérique. Aucune image de lyse osseuse ni d'image d'apposition périostée en « feu d'herbe » n'a été observée (Figures 2 et 3).



**Figure 2.** TDM en coupe coronale : image de densité osseuse limitée par un liseré de condensation



**Figure 3.** TDM en coupe sagittale précise la localisation de la lésion, qui est pédiculée et bien limitée, au-dessus de la ligne mylohyoïdienne

Devant les critères cliniques et radiologiques, la suspicion de malignité a été écartée et le diagnostic de présomption d'ostéome périphérique a été posé. L'exérèse a été indiquée devant la gêne fonctionnelle (gêne à la mastication, dysarthrie) occasionnée par cette masse osseuse intrabuccale. Sous Anesthésie générale et après infiltration à la xylocaïne adrénalinée, une incision était réalisée à 1 cm du bord sulculaire avec une décharge vestibulaire mésiale. Le décollement mucopérioste a dénudé le pédicule osseux qui a été réséqué en bloc en utilisant le moteur à ultrason (Piezochirurgie Plus, Mectron 4) complété par un curetage osseux. La suture muqueuse était réalisée au fil résorbable. Nous n'avons pas enregistré de complications postopératoires hémorragique ou nerveuse (atteinte du nerf lingual). L'examen histologique a confirmé le diagnostic d'ostéome. Aucune récurrence n'a été non plus constatée avec un recul de sept ans.

## Discussion

L'ostéome est une tumeur ostéogénique bénigne, formée d'os compact et/ou spongieux mature et bien différencié, souvent asymptomatique. Cette tumeur est habituellement isolée et unique. Lorsqu'elle est multiple, elle doit faire suspecter le syndrome de Gardner qui est une maladie autosomique dominante à pénétrance variable caractérisée par une pléiotropie et hétérogénéité génétique au niveau du gène APC (*adenomatous polyposis coli*) du chromosome 5. Les manifestations extracoliques sont révélateurs de ce syndrome à type : d'ostéomes multiples, de dents surnuméraires ou incluses, d'une hypertrophie congénitale de l'épithélium pigmenté rétinien, de tumeurs cutanées et de tumeurs du tissu mou à type de fibrome desmoïde. Les polypes colo-rectaux ont un fort potentiel de dégénérescence maligne, qui atteint 100 % à la 4ème décennie (3). L'association de l'ostéome à d'autres tumeurs osseuses bénignes est exceptionnelle, elle a été rapportée chez une patiente avec une atteinte mandibulaire homolatérale associant un ostéome périphérique, un odontome complexe, une dysplasie cémento-osseuse et un fibrome cémento-ossifiant (4). Notre patiente a présenté un ostéome mandibulaire isolé sans aucune symptomatologie associée évocatrice du syndrome de Gardner. L'étiopathogénie n'est pas clairement définie. Elle serait le produit d'interaction complexe de facteurs génétiques et environnementaux. Certains auteurs ne considèrent pas l'ostéome comme étant une pathologie tumorale mais

plutôt une anomalie de développement au dépend des reliquats embryonnaires cartilagineux ou périostés alors que d'autres incriminent le mécanisme de réactivation osseuse réactionnelle suite au décollement infectieux ou traumatique du périoste (œdème, hématome). Cette réaction ostéogénique est entretenue par les sollicitations mécaniques des insertions musculaires (5). Aucun facteur infectieux ou traumatique n'a été révélé chez notre patiente.

Cette lésion se voit à tout âge mais il semble que l'adulte entre la troisième et la cinquième décennie est le plus souvent atteint. La prédilection sexuelle est controversée. Certains auteurs rapportent une répartition sexuelle équivalente, d'autres décrivent une prédilection masculine avec un ratio de 2/1. La prédilection féminine est aussi trouvée dans la littérature avec un ratio de 2/1 à 1,5/1 (6).

Cliniquement, l'ostéome périphérique est le plus souvent asymptomatique, ce qui explique le retard et le défaut diagnostique. Il est habituellement unilatéral et indolore caractérisé par une évolution lente et progressive où il dépasse rarement les deux centimètres. Seulement des cas sporadiques d'ostéome périphériques, soit de taille assez importante, soit de localisation inhabituelle ont été rapportés dans la littérature (tableau 1).

**Table 1 : Caractéristiques épidémio-cliniques et évolutives de l'ostéome périphérique mandibulaire**

Auteur/Année	Age (ans) - sexe	Localisation	Symptomatologie	Taille (cm)	Abord/Anesthésie	Récidive
Propre cas	36 - F	BH-L-G	Gêne mastication Dysarthrie Tum ind	4,5 × 3,5	Intraoral AL Piézo-chirurgie Intraoral	Non
Fourcade <i>et al.</i> , 2018, (1)	41 - H	Crête D (rétro-molaire)	Tum ind	1,5 × 1	AL	Non
Agarwel <i>et al.</i> , 2021, (2)	19 - F 24 - F 42 - F	Bord inf G Bord inf D Angle D	Tum ind Tum ind Tum doul	3,5 × 2,5 1,5 × 1,5 1,5 × 1,5	Cutané AL Cutané AG Cutané AL	Non
Ozturk H <i>et al.</i> 2018, (5)	8 - H	Angle G	Tum ind	1,5 × 1,5	Cutané AG	Non

Auteur/Année	Age (ans) - sexe	Localisation	Symptomatologie	Taille (cm)	Abord/Anesthésie	Récidive
Wolf Grotto <i>et al.</i> , 2022, (6)	35 - H	BH-L-D	Tum ind Dysarthrie	4,2 × 4,8	Intraoral AG	Non
Tarsitano A <i>et al.</i> , 2013, (7)	41 - H	Angle D	Tum ind Apnée de sommeil	?	Cutané AG	Non
Bulut E <i>et al.</i> , 2010, (8)	37 - F	BH-V-G	Tum ind	3 × 3	Intraoral AL	Non
Olivares CM <i>et al.</i> , 2020, (9)	36 - F	BH-V-G Condyle-ext Condyle-int	Paresthésie Craquement ATM	2 × 2	Intraoral AG Piézochirurgie	Non
Hernando J <i>et al.</i> , 2018, (10)	69 - F	Bord inf G	Tum ind Hypoesthésie	3 × 3	Cutané AG Piézochirurgie	Oui (après 45 ans)

F: femme/ H: homme / G: Gauche/ D: Droit/ inf: inférieur/ ext: externe/ int: interne, BH-L: Branche horizontale versant lingual/ BH-V: Branche horizontale versant vestibulaire, Tum ind: tuméfaction indolore/ Tum doul: tuméfaction douloureuse, AL: anesthésie locale/ AG: anesthésie générale

Notre patiente a présenté un ostéome situé au niveau du versant lingual de la branche horizontale mandibulaire gauche, qui est considérée comme une localisation très rarement décrite, et de taille assez importante (4,5 × 3 cm). L'ostéome périphérique se traduit par une masse bien limitée de consistance dure, de surface régulière ou exophytique, recouverte d'une muqueuse saine. Il se localise préférentiellement au niveau des zones d'attaches musculaires aussi bien au niveau du versant lingual qu'au niveau du versant vestibulaire. Sa découverte dépend de sa taille et de sa localisation ainsi que de son retentissement morpho-fonctionnel. Devenant symptomatique, il se manifeste par une asymétrie faciale, une dysarthrie, une gêne à la mastication par obstacle aux mouvements de latéralité de la langue, une limitation de l'ouverture buccale, une atteinte sensitive par compression nerveuse, une apnée de sommeil par refoulement de la langue au niveau du pharynx. Par ailleurs, l'ostéome périphérique crée des poches rétentrices d'aliments et entrave l'hygiène buccale source d'halitose. Nombreux cas d'ostéome restent méconnus, ou révélés fortuitement par un examen de routine (7).

Les clichés radiologiques de type radio-occlusale ou panoramique mettent en évidence une image radio-opaque. Pour une meilleure étude de la localisation, de la taille et de l'étendue lésionnelle ainsi que son retentissement sur les structures anatomiques environnantes, la

réalisation d'examens radiologiques plus élaborés s'impose, notamment le cone beam et la tomodensitométrie. Sur les clichés standards, l'ostéome se traduit par une opacité bien circonscrite ronde ou ovalaire. L'examen tomodensitométrique permet une meilleure étude du type de la lésion, pédiculé ou sessile ainsi que de sa localisation et de son extension. Habituellement, il se présente comme une image hyperdense de densité osseuse, de forme ronde, ovalaire ou à contours polycycliques bien limitée, cette lésion peut être sessile ou pédiculée. Il est rapporté dans la littérature que l'ostéome périphérique de type compact se traduit sur le plan radiologique par une opacité homogène sessile. Il peut être en partie intra-osseux, alors que l'ostéome périphérique de type spongieux est révélé, par une opacité pédiculée hétérogène habituellement polycyclique délimitée par un liseré de condensation périphérique traduisant ; l'os compact qui est toujours présent à la surface de ce type d'ostéome (8). Cette description est concordante avec les résultats trouvés sur les clichés tomodensitométriques de notre patiente : l'image était ovalaire pédiculée hétérogène de densité similaire à celle de l'os adjacent et avait des contours festonnés hyperdense caractérisant l'os compact. Les données radio-cliniques peuvent orienter vers d'autres pathologies de type inflammatoires ou néoplasiques.

Parmi ces pathologies, les plus fréquemment rapportées sont l'exostose (torus mandibulaire), l'ostéoblastome, l'ostéome ostéoïde, le fibrome ossifiant...l'ostéosarcome de bas grade reste aussi à évoquer. La confirmation histologique est impérative. L'exostose mandibulaire (torus) est une excroissance osseuse au niveau de l'os alvéolaire et qui n'est pas considérée comme pathologique ni néoplasique. Elle est souvent bilatérale et symétrique. L'atteinte palatine est assez fréquente. Elle est de croissance lente et atteint sa taille maximale à l'adolescence jusqu'à ce que la croissance du squelette facial est achevée. L'origine génétique est fortement incriminée. L'exostose présente une similitude histologique par rapport à l'ostéome. En ce qui concerne l'ostéoblastome et l'ostéome ostéoïde, ils sont douloureux et caractérisés par une croissance plus rapide que celle de l'ostéome. Quant au fibrome ossifiant, il est caractérisé par une composante fibreuse au sein d'une lésion cémento-osseuse qui se traduit aussi par une image hétérogène (1, 9). Les indications du traitement chirurgical peuvent être d'ordre esthétique (tuméfaction visible, asymétrie faciale), prothétique (chirurgie pré-prothétique), traumatique (érosion et ulcération muqueuse), hygiénique (rétention alimentaire), psychologique (cancérophobie) et fonctionnelle (mastication, déglutition, phonation). L'exérèse chirurgicale doit être complète afin d'éviter les récurrences qui restent extrêmement rares mais qui peuvent survenir après plusieurs années d'évolution. Par ailleurs aucun cas de dégénérescence maligne n'a été décrit dans la littérature.

Généralement, l'abord intra-oral est délicat et contraignant. Les instruments rotatifs classiques sont difficiles à manipuler avec un risque hémorragique non négligeable. Encore plus grave, sont les séquelles nerveuses iatrogènes irrattrapables engageant la responsabilité médico-légale du chirurgien. Ainsi, il y a lieu de souligner l'intérêt du bistouri piézoélectrique qui permet de réaliser des sections précises seulement au niveau des tissus minéralisés. En effet, les ultrasons n'induisent jamais de section des tissus mous sans risque d'engendrer de plaie

nerveuse ou vasculaire. D'autres avantages incitent l'utilisation du moteur piezoelectrique notamment le raccourcissement du temps opératoire, l'absence quasi-totale d'œdème post opératoire avec une douleur amoindrie. Pour le cas en discussion, nous n'avons enregistré aucun accident hémorragique per- opératoire, ni de plaie malencontreuse des tissus mous ni d'atteinte nerveuse non plus en particulier celle du nerf lingual (9-10).

## Conclusion

L'ostéome périphérique mandibulaire de localisation exceptionnelle est une lésion bénigne dont l'exérèse chirurgicale est exceptionnellement suivie de récurrence. Aucun cas de dégénérescence maligne n'a jamais été recensé. Le diagnostic histologique est crucial afin d'éliminer une pathologie néoplasique et de déterminer la nature de la lésion.

Le dépistage du syndrome de Gardner devrait être systématique à la recherche d'éventuels polypes colorectaux dont la dégénérescence approche 100 % à l'âge de 40 ans.

La chirurgie piézoélectrique devrait être en plein essor en chirurgie maxillo-faciale, elle procure une innocuité au geste chirurgical, une sécurité au chirurgien et un confort au patient.

**Conflit d'intérêt :** Aucun

## Références

1. Fourcade A, Salmon B, Le Pelletier F, Ejeil A-L. Peripheral osteoma of the mandibular crest : a short case study. *J Oral Med Oral Surg* 2018; **24** (1): 29-32. <https://doi.org/10.1051/mbcb/2017020>
2. Agarwal S, Bhansali S-P, Talreja G, Tiwari A. Surgical excision of peripheral osteoma of the inferior border of the mandible by extraoral approach : A case report of three cases. *Ann Maxillofac Surg* 2021; **11** (2): 333-335. doi: 10.4103/ams.ams\_359\_20

3. Antohi C, Haba D, Caba L, Ciofu ML, Drug VL, Barboi OB, *et al.* Novel mutation in APC gene associated with multiples osteoma in a family and review of genotype-phenotype correlations of extracolonic manifestations in Gardner Syndrome. *Diagnostics* (Basel) 2021; **11** (9): 1560. Doi : 10.3390/diagnostics11091560
4. Borghesi A, Tonni I, Pezzotti S, Maroldi R. Peripheral osteoma, compound odontoma, focal cemento-osseous dysplasia, and cemento-ossifying fibroma in the same hemimandible : CBCT findings of an unusual case. *Radiol Case Rep* 2017; **12** (4): 756-759. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2017.08.011>.
5. Ozturk H, Torul D, Yuceer E, Karli R, Baris S. Peripheral osteoma of mandibular angulus : analysis of the literature and report of a new case. *Odovtos-Int. J. Dental Sc* 2018; **20** (2): 61-70. <http://dx.doi.org/10.15517/ijds.v0i0.32521>.
6. Wolf-Grotto I, Nogurira LM, Milani B, Marchiori EC. Management of giant osteoma in the mandible associated with minor trauma: a case report. *J Med Case Rep* 2022; **16** (1): 8. Doi: 10.1186/s13256-021-03217-2.
7. Tarsitano A, Marchetti C. Unusual presentation of obstructive sleep apnoea syndrome due to giant mandible osteoma : case report and literature review. *Acta Otorhinolaryngol Ital* 2013; **33** (1): 63-66.
8. Bulut E, Acikgos, Ozan B, Gunhan O. Large peripheral osteoma of the mandible: a case report. *Int J Dent* 2010; **2010**: 834761.doi: 10.1155/2010/834761.
9. Olivares CM, Francisco PL, Claudio HM, Francisco PH. Multiple mandibular osteomas not associated with Gardner Syndrome: case report and literature review. *Res Rep Oral Maxillofac Surg* 2020; **4** (038): 1-7. doi:10.23937/2643-3907/1710038
10. Hernando J, Salvatierra AA, Leizaola-Cardesa IO, Seijas PM, Aguirre-Echebarria P, Martin J, *et al.* Piezosurgery for treatment of large recurrent mandibular osteoma. *J Craniofac Surg* 2018; **29** (3): e219-e221. Doi:10.1097/SCS.00000000000004141.

Voici comment citer cet article : Turki IM. Ostéome périphérique mandibulaire : une observation clinique. *Ann Afr Med* 2022; **15** (4): e4833-e4838. <https://dx.doi.org/10.4314/aamed.v15i4.10>