Journal of african clinical cases and reviews / Journal africain des cas cliniques et revues

www.jaccrafrica.com ISSN 1859-5138 Open access

*Cas clinique*

# Défis diagnostiques et thérapeutiques des ostéites fongiques : observation d'un cas au Centre Hospitalier Universitaire Régional de Ouahigouya

Diagnostic and therapeutic challenges of fungal osteitis: observation of a case at the Ouahigouya Regional University Hospital Center.

A Coulibaly[1]*, IW Yerbanga[2], I Traore[3], TA Salami[4], A Sawadogo[5], T Konsem[6]

**Résumé**

Introduction : l'ostéite fongique est une infection opportuniste inhabituelle potentiellement mortelle. Le pronostic vital repose sur un diagnostic précoce et un traitement efficace. Nous rapportons un cas d'ostéite fongique maxillo-zygomatique au Centre Hospitalier Universitaire Régional (CHUR) de Ouahigouya en mettant l'accent sur les défis diagnostiques et thérapeutiques dans un contexte à ressources limitées.

Cas clinique : un patient âgé de 41 ans, cultivateur, a été reçu en consultation dans le service de Chirurgie Maxillo-faciale du CHUR de Ouahigouya pour une troisième reprise post-opératoire de fistulisation cutanée de pus sous orbitaire gauche évoluant depuis deux mois. Cette suppuration faisait suite à un long itinéraire diagnostique et thérapeutique successivement dans deux autres hôpitaux sans succès. Les explorations cliniques et paracliniques ont permis de poser le diagnostic d'ostéite fongique chronique maxillo-zygomatique à Aspergillus niger sensible à l'amphotéricine B. Un traitement chirurgical suivi d'un traitement antifongique à base d'amphotéricine B a permis de juguler l'infection avec une absence de suppuration de plus de trois ans.

Conclusion : une ostéite fongique doit être évoquée devant tout cas d'ostéite chez un patient immunodéprimé surtout lorsque les traitements antibiotiques et chirurgicaux sont inefficaces. Une investigation complète microbiologique et histologique doit systématiquement être effectuée afin d'identifier l'agent fongique.

Mots-clés : ostéite fongique, maxillo-zygomatique, traumatisme, orbito-zygomatique.

**Abstract**

Introduction: fungal osteitis is an unusual, life-threatening opportunistic infection. The vital prognosis depends on early diagnosis and effective treatment. We report a case of fungal maxillo-zygomatic osteitis at the Center Hospitalier Universitaire Régional (CHUR) of Ouahigouya with a focus on diagnostic and therapeutic challenges in a limited ressource context.

Clinical case: a 41-year-old patient, a farmer, admitted to the Maxillo-facial Surgery department of the CHUR of Ouahigouya for a post-operative left suborbital suppuration of the skin evolving for two months. This suppuration followed a long diagnostic and therapeutic route successively in two other hospitals without success. The clinical and paraclinical examinations made the diagnosis of chronic fungal maxillo-zygomatic osteitis due to Aspergillus niger sensitive to amphotericin B. Surgical treatment followed by an antifungal treatment based on amphotericin B made it possible to control the infection with an absence of recurrence for more than three years.

Conclusion: fungal osteitis should be considered in any case of osteitis in an immunocompromised patient, especially when antibiotic and surgical treatments are ineffective. A complete microbiological and histological investigation must systematically be carried out in order to identify the fungal agent.

Keywords: fungal osteitis, maxillo-zygomatic, trauma, orbito-zygomatic.

Les auteurs rapportent un cas clinique d'une ostéite fongique maxillo-zygomatique consécutive à un traumatisme orbito-zygomatique gauche négligé. Ce travail vise à rappeler les difficultés diagnostiques et thérapeutiques de ces cas rares d'ostéites fongiques dans un contexte à ressources limitées.

## Introduction

Les ostéites des os de la face sont des inflammations aiguës ou chroniques du tissu osseux d'origines diverses [1]. Elles sont liées dans la majorité des cas à une origine locale, dentaire, traumatique ou tumorale. Les ostéites d'origine infectieuse sont principalement de causes bactériennes. Toutefois, des ostéites d'origine fongique ont été rapportées [2-4]. Il s'agit d'infections fongiques invasives survenant sur des terrains immunodéprimés. Ce sont des infections graves, en raison de leur forte létalité et des lourdes répercussions fonctionnelles et esthétiques qu'elles engendrent [3, 4]. La précocité du diagnostic et du traitement permet d'améliorer le pronostic vital, fonctionnel et esthétique. Ce diagnostic repose sur les bilans clinique, radiologique, microbiologique et histologique [5]. Les barrières financières aux soins et l'insuffisance du plateau technique retardent le diagnostic et le traitement dans notre contexte.

## Cas clinique

Un patient âgé de 41 ans, cultivateur, a été reçu en consultation dans le service de Chirurgie Maxillo-faciale du CHUR de Ouahigouya pour une troisième reprise post-opératoire de fistulisation cutanée de pus sous orbitaire gauche évoluant depuis deux mois. Cette troisième suppuration faisait suite à un long itinéraire diagnostique et thérapeutique avec des épisodes de rémission et de reprise de suppuration sous orbitaire. Le patient a consulté dans deux hôpitaux avant son admission au CHUR. Deux prélèvements de pus pour culture avaient été réalisés dans ces hôpitaux mais tous revenus négatifs. Toutefois, une antibiothérapie et une intervention chirurgicale ont été réalisées dans ces hôpitaux à un intervalle d'un an environ. Devant la persistance de la suppuration, une automédication et un traitement traditionnel de natures non précisées ont été entrepris sans succès avant son admission au CHUR de Ouahigouya.

L'examen clinique notait sur le plan général, un patient conscient avec un état général conservé, une anémie clinique modérée, des constantes hémodynamiques stables, un poids à 63kg et une taille à 1,65m. A l'examen physique, une tuméfaction orbito-zygomatique et temporale gauche (**figure 1**), fluctuante par endroits et ferme en d'autres, peu sensible, faisant corps avec l'os et laissant soudre du pus à la pression au niveau du canthus interne. Il a aussi été noté, une rétraction de la paupière inférieure, une exophtalmie gauche et une perte de la sensibilité sous orbitaire gauche. La vision et la motilité oculaire étaient conservées. Le reste de l'examen était normal. Nous avons évoqué deux hypothèses diagnostiques : une ostéite chronique maxillo-zygomatique gauche ou une récidive d'une tumeur maxillo-zygomatique

gauche surinfectée.

La TDM maxillo-faciale a objectivé une lyse osseuse maxillo-zygomatique et une hypodensité de la cavité sinusienne (**figure 2**). La créatininémie, la glycémie et l'hémogramme étaient normaux en dehors d'une anémie à 10 g/dl. Les sérologies hépatite viral B et rétrovirale étaient négatives mais une immunodépression a été retrouvée avec un taux de CD4 à 300/ $mm^3$.

Un drainage et une séquestrectomie avec lavage abondant à l'antiseptique puis au sérum salé ont été réalisés (**figure 3**). Des prélèvements de pus pour culture et de tissus infiltrés pour examen anatomopathologique ont été réalisés avant l'aspiration du pus, la nécrosectomie et la séquestrectomie. La pyoculture a identifié *Streptococcus pyogène* sensible aux imipenèmes et l'examen anatomopathologique a objectivé une absence de cellules tumorales et évoqué un processus infectieux tissulaire sans préciser le germe. Le diagnostic d'ostéite bactérienne chronique maxillo-zygomatique gauche a été retenu.

Un traitement par voie intraveineuse avec imipenème cilastatine, 1000 milligramme toutes les huit heures pendant deux semaines a été institué sans succès. Une quatrième fistulisation cutanée de pus sous orbitaire gauche est survenue deux semaines après l'arrêt de l'antibiothérapie. Un autre drainage avec prélèvement de pus pour culture et biopsie des tissus infiltrés a été réalisé trois mois après la première chirurgie. La deuxième pyoculture a identifié *Aspergillus niger* sensible à l'amphotéricine B (**figure 4**). Toutefois, la pièce de biopsie n'a pu être déposée pour indigence financière.

Le diagnostic définitif d'ostéite fongique chronique maxillo-zygomatique à *Aspergillus niger* a été retenu. Le traitement à l'amphotéricine B (60 mg/24h) institué pendant 10 semaines sous contrôle biologique a permis de juguler l'infection. Il n'y a pas eu de reprise de suppuration après un recul de 3 ans. Cependant, il a été noté des séquelles fonctionnelles à type de malocclusion palpébrale gauche et esthétiques à type de dépression de l'hémiface et d'un ectropion qui nécessiterons des réparations ultérieures (**figure 5**).



Figure 1 : tuméfaction maxillo-zygomatique et temporale gauche



Figure 2 : TDM maxillo-zygomatique montrant l'hypodensité et la lyse osseuse



Figure 3 : exposition de la cavité séropurulente avec séquestres osseux

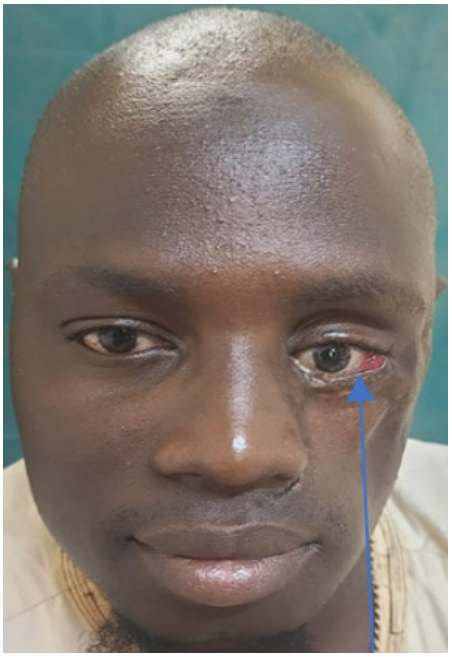


Figure 5 : patient après un recul de 3 ans avec dépression de l'hémiface gauche et un ectropion

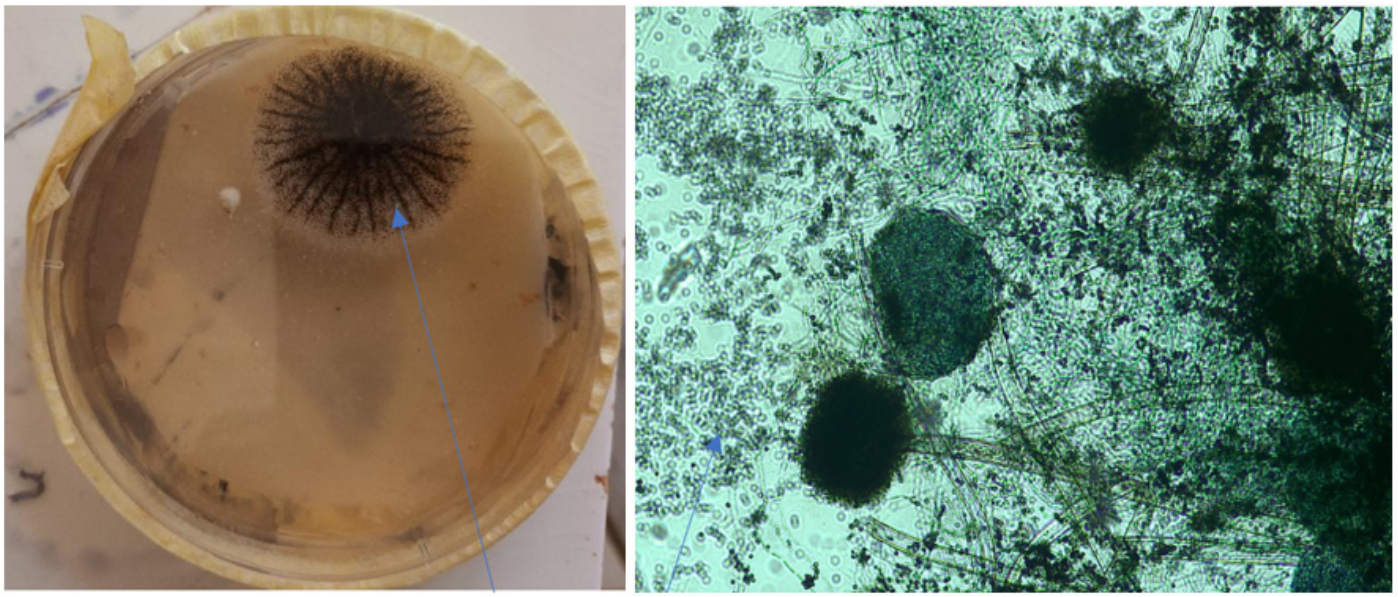


Figure 4: Caractéristiques macroscopiques et microscopiques des colonies d'*Aspergillus niger* à la deuxième pyoculture

**Discussion**

Les ostéites fongiques sont des infections opportunistes inhabituelles potentiellement mortelles. Plusieurs facteurs de risque à savoir le diabète sucré non contrôlé, la thérapie stéroïdienne à long terme, la leucémie, les lymphomes, l'insuffisance rénale et le syndrome d'immunodéficience acquise (SIDA) ont été associés aux ostéites fongiques [3-7]. Les Candida sp., Aspergillus sp. et les Mucorales sont les agents fongiques les plus fréquemment isolés en cas d'ostéites fongiques [2-4]. Le taux de mortalité des ostéites fongiques est très élevé pouvant atteindre 40% en fonction de l'agent en cause [3]. Un diagnostic précoce et une prise en charge chirurgicale et médicale adéquate et agressive constituent la pierre angulaire d'une issue favorable. Le premier cas d'aspergillose

maxillaire a été rapporté par Morrel en 1893[6]. Les principales espèces aspergillaires isolées en cas d'aspergillose invasive sont par ordre de fréquence : Aspergillus fumigatus (80-90%), Aspergillus flavus (5-10%) et Aspergillus niger (1-5%) [7, 8]. Toutefois, la prédominance d'une espèce aspergillaire dans la survenue des infections fongiques est fortement influencée par les caractéristiques géo-climatiques [9]. Cela commande la nécessité d'identifier dans chaque région la part attribuable à chaque espèce dans la survenue des infections fongiques invasives. Les voies de contamination par ces agents fongiques sont multiples. Elle peut se faire soit par inoculation directe à travers une plaie, soit par contiguïté à travers un foyer dentaire, parodontale ou respiratoire, soit par voie hématogène. La porte d'entrée de l'infection dans ce cas clinique semble être post-traumatique. Néanmoins un envahissement à partir d'une aspergillose du sinus maxillaire gauche n'est pas à exclure. L'infection se développe toujours sur un terrain immunodéprimé [5-8]. Bien qu'une immunodépression n'ait été formellement identifiée dans ce cas clinique, le faible taux de CD4 (= 300/mm3), fait suspecter la présence d'une immunodépression dont l'origine reste à déterminer. De plus, les médicaments administrés durant les deux ans avant son admission pourraient également constituer une source d'immunodépression notamment à travers l'administration de corticoïdes. Dans le présent cas clinique, l'itinéraire diagnostique et thérapeutique et le délai mis pour poser le diagnostic d'ostéite fongique à Aspergillus niger a été long. En effet les premières cultures de pus et l'histologie des pièces de biopsie n'ont pas pu isoler le germe. Ceci témoigne de la nécessité de renforcer les connaissances des cliniciens, biologistes et anatomopathologistes sur le diagnostic des infections fongiques notamment invasives. Les chirurgiens devraient pouvoir faire des prélèvements de pus de qualité de même que des coupes histologiques à même de permettre une amélioration de la sensibilité des résultats. En outre, les laboratoires doivent également être équipés de façon conséquente pour le diagnostic des infections fongiques. La deuxième pièce de biopsie n'a pu été analysée faute de moyens financiers. Cette situation fréquente dans notre contexte pose le problème de la barrière financière aux soins dans les pays à ressources limitées. Le traitement probabiliste reste parfois la seule alternative au médecin traitant avec parfois des erreurs thérapeutiques tel que dans ce cas clinique. Quant au traitement spécifique il a reposé sur le test de sensibilité qui a permis d'identifier l'amphotéricine B. Cela souligne la nécessité devant tout cas d'infection fongique invasive de réaliser un test de sensibilité aux antifongiques afin de guider le traitement.

## Conclusion

Le diagnostic des ostéites fongiques s'avère difficile dans un contexte sous médicalisé. Toutefois, la gravité de ces infections requiert d'y penser surtout dans le cadre d'ostéite chronique chez un patient immunodéprimé ou les traitements antibiotiques et / ou chirurgicaux ont été inefficaces. La culture permet le diagnostic microbiologique certifié par l'histologie. L'efficacité du traitement repose sur une combinaison du traitement chirurgical et antifongique spécifique.

---

***Correspondance**

Arsène Coulibaly

arsencool@yahoo.fr

**Disponible en ligne** : 12 Décembre 2023

1 : Service de Chirurgie Maxillo-facial ; CHUR de Ouahigouya, Burkina Faso
2 : Service de Stomatologie/Chirurgie Maxillo-faciale ; Sourô Sanou, Bobo Dioulasso, Burkina Faso
3 : Service de Laboratoire ; CHUR de Ouahigouya, Burkina Faso
4 : Service de Stomatologie/Chirurgie Maxillo-faciale ; CHU de Treichville, Abidjan, Côte

d'Ivoire
5 : Service d'infectiologie et de maladies tropicales ; CHUR de Ouahigouya, Burkina Faso
6 : Service de Stomatologie/Chirurgie Maxillo-faciale ; CHU Yalgado OUEDRAOGO, Burkina Faso

© Journal of African Clinical Cases and Reviews 2023

**Conflit d'intérêt :** Aucun

**Références**

[1] Maes JM, Raoul G, Omezzine M, Ferri J. Ostéites des os de la face. EMC-stomatologie 2005;1(3):208-30.
[2] Verma A, Singh V, Jindal N, Yadav S. Necrosis of maxilla, nasal, and frontal bone secondary to extensive rhino-cerebral mucormycosis. natl j maxillofac surg 2013;4:249- 51.
[3] Srivastava A, Mohpatra M, Mahapatra A. Maxillary fungal osteomyelitis: a review of literature and report of a rare case. ann maxillofac surg 2019;9:168- 73.
[4] Ishandono D, Aditya W, Aditya RF, Siti IW, Nurardhilah V, Muhammad RS, Muhammad BL, Franciscus WP. Invasive maxillary aspergillosis in a patient with systemic lupus erythematosus: case report. ann med surg 2020;58:44 – 7.
[5] Donnelly JP, Chen SC, Kauffman CA et al. Revision and update of the consensus definitions of invasive fungal disease from the european organization for research and treatment of cancer and the mycoses study group education and research consortium. clin infect dis 2020;71(6):1367-76.
[6] Rudagi M, Rajshekhar H et al. Management of maxillary aspergillosis in a patient with diabetic mellitus followed by prosthetic rehabilitation. j maxillofac oral surg 2010, 9(3):297-301.
[7] Filippi A, Dreyer T, Bohle RM, Pohl Y, Rosseau S. Sequestration of the alveolar bone by invasive aspergillosis in acute myeloid leukemia. j oral pathol med 1997;26(9):437-40.
[8] Akhaddar A, Gazzaz M, Albouzidi A, Lmimouni B, Elmostarchid B, Boucetta M. Invasive aspergillus terreus sinusitis with orbitocranial extension: case report. surg neurol 2008;69(5):490-5.
[9] Hedayati MT, Pasqualotto AC, Warn PA, Bowyer P, Denning DW. Aspergillus flavus: human pathogen, allergen and mycotoxin producer. Microbiology 2007, 153 :1677–92.

**Pour citer cet article :**

A Coulibaly, IW Yerbanga, I Traore, TA Salami, A Sawadogo, T Konsem. Défis diagnostiques et thérapeutiques des ostéites fongiques : observation d'un cas au Centre Hospitalier Universitaire Régional de Ouahigouya. Jaccr Africa 2023; 7(4): 260-265