

OSTEOMYELITE ATYPIQUE OU CENTRALE DE LA BASE DU CRANE D'ORIGINE SINUSIENNE

CENTRAL OR ATYPICAL SKULL BASE OSTEOMYELITIS CONSECUTIVE TO SINUSITIS INFECTIONS

R. Ben M'hamed, H. Hachicha, S. Mezri, C. Zgolli, G. Chebbi, H. Brahem, M. Balti, A. Merdessi, N. Mathlouthi, K. Akkari, S. Benzarti.

Service d'ORL et de chirurgie maxillofaciale, hôpital militaire principal d'instruction de Tunis, Tunisie.
Faculté de médecine de Tunis - Université De Tunis El Manar

RESUME

Introduction : L'ostéomyélite de la base du crâne est typiquement secondaire à une otite externe nécrosante chez des patients âgés, diabétiques. Elle atteint l'os temporal et est habituellement due au *Pseudomonas aeruginosa*. Dans sa forme atypique, l'ostéomyélite atteint les os sphénoïdal ou occipital sans otite externe associée est beaucoup moins fréquente. Le but de cette étude est d'analyser les caractéristiques cliniques et de déterminer les modalités thérapeutiques de l'ostéomyélite non otologique de la base du crâne.

Méthodes : Nous avons revu rétrospectivement deux cas d'ostéomyélite atypique de la base du crâne.

Résultats : Les deux patients se sont présentés dans un tableau d'altération de l'état général, une asthénie, des céphalées et de la fièvre. Les signes rhinologiques étaient discrets. Aucun des deux patients n'avait de déficit neurologique. L'imagerie avait montré une destruction osseuse, la biologie a objectivé un syndrome infectieux et une biopsie osseuse trans sphénoïdale a confirmé le diagnostic d'ostéomyélite. Un traitement antibiotique prolongé a été instauré et les deux patients ont été guéris sans récurrence moyennant un recul de 12 mois.

Conclusion : l'atteinte ostéomyélique centrale de la base du crâne est une affection rare dont la prise en charge passe par un prélèvement osseux précoce et un traitement approprié afin de prévenir ou limiter d'autres complications telles qu'une extension endocrânienne, un empyème, ou la mort.

Mots Clés: Ostéomyélite; Base du crâne; sphénoïdite; IRM

ABSTRACT

Introduction : Skull base osteomyelitis typically arises as a complication of ear infection in older diabetic patients, involves the temporal bone, and has *Pseudomonas aeruginosa* as the usual pathogen. Atypical skull base osteomyelitis arising from the sphenoid or occipital bones without associated external otitis occurs much less frequently. The purpose of this study was to review the clinical features and determine efficacy of treatment for nonotologic osteomyelitis of the skull base.

Methods : We retrospectively reviewed two cases of central or atypical skull base osteomyelitis.

Results : The two patients presented with asthenia, headache, and fever. No patient presented with neurologic deficits. Contrary to malignant otitis externa, our cases were not preceded by immediate external infections and had normal external ear examinations. One patient had an underlying immunocompromising condition. Imaging demonstrated bone destruction, subsequent microbiological analysis diagnosed infection and a biopsy proved diagnosis of osteomyelitis, a prolonged antibiotic treatment was instored. The two patients were cured with no recurrence of skull base infection over 12-month follow-up period.

Conclusion : Central skull base osteomyelitis is a rare disease whose treatment requires an early bone biopsy and appropriate treatment to prevent or limit other complications such as intracranial extension, empyema, or death.

Key Words : Osteomyelitis; Skull base; sphenoiditis; MRI

INTRODUCTION

L'atteinte inflammatoire de la base du crâne peut faire suite à une infection des sinus paranasaux, à un traumatisme crânien ou à une chirurgie endonasale. Elle peut aussi se voir en l'absence d'une source évidente contiguë d'infection (1). Les complications graves comme l'ostéomyélite devraient se produire plus fréquemment chez les patients immunodéprimés et chez ceux ayant une immunodépression locale relative séquelle d'une radiothérapie.

Les résultats de l'imagerie sont particulièrement préoccupants car ils imitent souvent une tumeur maligne, ce qui rend le diagnostic histologique d'autant plus important.

Une intervention chirurgicale est généralement nécessaire pour exclure une néoplasie sous-jacente, identifier le germe en cause, et supprimer les séquestres osseux. Associée à une antibiothérapie systémique, elle demeure la pierre an-

gulaire du traitement. (2). Le but de notre travail est de préciser les difficultés diagnostiques et thérapeutiques de cette affection pouvant mettre en jeu le pronostic vital.

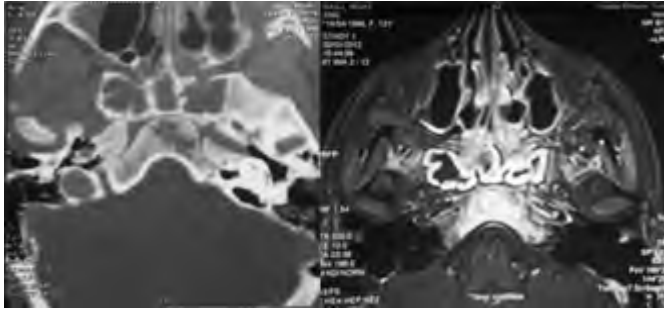
CAS CLINIQUE N°1

Melle Nadia, âgée de 13 ans, aux antécédents d'anémie ferriprive soustraite à un traitement, sans antécédents rhinologiques, a consulté en urgence pour des céphalées postérieures associées à des signes rhinologiques frustes dominés par une obstruction nasale et une rhinorrhée postérieure évoluant dans un contexte fébrile depuis 3 semaines.

L'examen clinique a objectivé une fièvre à 38°C, un jetage postérieur purulent, l'endoscopie nasale a montré des polypes sphéno-choanaux bilatéraux avec des sécrétions purulentes au niveau du recessus sphénoïdal gauche. Les examens neurologique et ophtalmologique spécialisés



étaient normaux. Un scanner du massif facial pratiqué en urgence a objectivé un comblement total des deux sinus sphénoïdaux avec ostéolyse du sphénoïde, du condyle occipital gauche et deux petites collections des espaces rétro-pharyngé et rétro-stylien (figure 1a).



a : ostéolyse du sphénoïde, du condyle occipital gauche.
b: atteinte du clivus, avec réhaussement des lésions après injection de gadolinium, un hyposignal du clivus en T.

Figure (1a, 1b) :

l'IRM a permis de confirmer l'atteinte du clivus par un réhaussement des lésions après injection de gadolinium (figure 1b), un hyposignal du clivus en T1 et un hyposignal en T2. Une sphénoïdotomie bilatérale avec ablation des polypes et biopsie osseuse a permis de confirmer le diagnostic. Le prélèvement bactériologique isolé un *pyocyanique*. Le traitement médical a associé claforan, vancomycine et gentamycine pendant 36 jours. L'évolution a été favorable et un nettoyage radiologique a été obtenu après 6 mois (figure 1c).

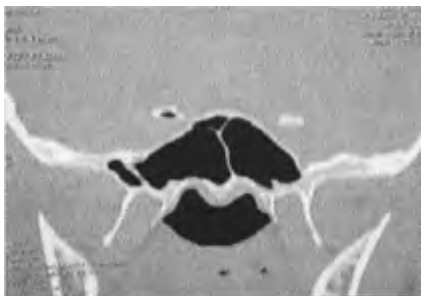


Figure 1c : Normalisation des images radiologiques

CAS CLINIQUE N°2

Mr Med.W, âgé de 55 ans aux antécédents de carcinome indifférencié du nasopharynx traité par chimioradiothérapie 12 ans auparavant, insuffisance hypophysaire sous HSHC et hypothyroïdie sous lévothyrox. A été référé à nos urgences dans un tableau d'altération de l'état général, apparue de façon relativement brutale dans un contexte fébrile. L'examen neurologique a objectivé une hémiparésie droite prédominante au membre inférieur et une atteinte de la 3ème paire crânienne homolatérale. Le scanner du massif facial complété par une IRM ont montré un comblement bilatéral du sinus sphénoïdal avec remaniement de l'os sphénoïdal et effraction du fond de la selle turcique, un abcès protubérantiel paramédian gauche et de l'hémisphère cérébelleux homolatéral associés à un empyème en regard de la protubérance annulaire et du porus du conduit auditif interne homolatéral (figure 2a,2b).

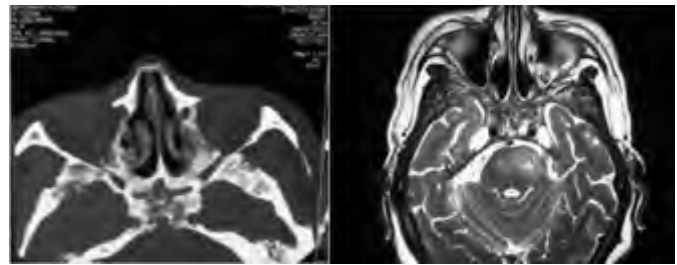


Figure (2a, 2b) : remaniement de l'os sphénoïdal et effraction du fond de la selle turcique, un abcès protubérantiel en paramédian gauche et de l'hémisphère cérébelleux homolatéral associés à un empyème en regard de la protubérance annulaire et du porus du conduit auditif interne homolatéral.

L'examen ORL complété par une endoscopie nasopharyngée a permis d'éliminer une récurrence tumorale et d'objectiver une muqueuse nasale remaniée inflammatoire et du pus en provenance du recessus sphénoïdal. Il existait un syndrome infectieux biologique avec VS à 94 mm à la première heure, CRP à 115 mg/l et une hyperleucocytose à 26000 élé/mm³. Une sphénoïdotomie avec ponction par voie trans-sphénoïdale a été réalisée, ramenant un liquide purulent. Les cultures ont identifié un *P.aeruginosa*. Le diagnostic d'ostéomyélite a été posé et un traitement parentéral, associant ceftazidime (2 g trois fois par jour) et ciprofloxacine (400 mg trois fois par jour) durant six semaines, relayé par ciprofloxacine (500 mg trois fois par jour) voie orale durant trois mois, a été instauré. L'imagerie de contrôle réalisée trois mois plus tard s'était normalisée.

DISCUSSION

L'ostéomyélite de la base du crâne est une affection rare, grave, secondaire à une inflammation des os et des tissus mous de la base du crâne (3). Par ordre de fréquence décroissante, cette infection est le plus souvent d'origine otogène, puis beaucoup plus rarement d'origine sinusienne, notamment sphénoïdale. L'ostéomyélite d'origine otogène, souvent dénommée «otite externe maligne», est qualifiée de «typique» par les auteurs anglo-saxons (4-7). Le diagnostic d'ostéomyélite d'origine non otogène, qualifiée d'«atypique», est souvent difficile, les cas rapportés sont peu nombreux (8-10). Ce processus infectieux a pour origine les os sphénoïde ou occipital. L'infection migre via le système Haversien de l'os compact pour atteindre la base du crâne, où elle provoque une ostéite et ostéomyélite. Divers organismes ont été impliqués, y compris *aspergillus*, *fusobacterium necrophorum*, *pseudomonas*, *salmonella*, *staphylococcus streptococcus* et *staphylococcus* (11,12). Elle survient principalement chez les diabétiques ou les immunodéprimés et chez les personnes âgées, mais a été également rapporté chez des patients immunocompétents, (3, 13). Des antécédents de radiothérapie antérieure de la tête et du cou semblent augmenter la prédisposition à l'ostéomyélite. Sur les 30 cas référencés, y compris les deux cas présentés ici, la moyenne d'âge était de 58 ans et la répartition selon le sexe était 5:1 (M: F). Par opposition à l'otite externe maligne, l'ostéomyélite atypique peut être très difficile à diagnostiquer avec certitude en préopératoire (14). En effet il n'y a pas de signes pathognomoniques à l'exa-



men physique et les symptômes fonctionnels sont dominés par les céphalées, souvent intenses, avec des symptômes liés à la paralysie d'un ou plusieurs nerfs crâniens (VI, IX, X, XI). Il n'y a pas d'anomalies radiographiques univoques qui conduisent de manière fiable au diagnostic d'ostéomyélite de la base du crâne. Les analyses biologiques montrent de façon constante une élévation de la C réactive protéine (CRP), alors que l'élévation des leucocytes est moins fiable (comme c'est le cas de la fièvre). Son évolution guide la durée du traitement et sa normalisation semble être un bon indicateur de guérison. Différentes modalités d'imagerie peuvent être utiles dans l'évaluation de ces patients. Seabold et al n'ont trouvé aucune preuve scannographique de l'érosion osseuse chez 13 des 35 patients malgré une biopsie confirmant le diagnostic d'ostéomyélite (15). L'érosion osseuse et une infiltration médullaire de la basiocciput, ainsi que l'aspect de pseudo tumeur des tissus mous en dessous de la base du crâne font évoquer un processus sous-jacent malin tels qu'un carcinome du nasopharynx ou une métastase de la base du crâne. Cela peut conduire à un retard dans le diagnostic parce que les biopsies chirurgicales pourraient être adressées uniquement pour une étude histologique. Diverses techniques d'imagerie nucléaire ont été préconisées en cas de suspicion d'ostéomyélite de la base de crâne : scintigraphie au gallium-67, indium-111 white blood cell scans, balayage osseux au technétium-99m méthylène diphosphonates (MDP), et la tomographie par émission de photon (SPECT). Les deux dernières techniques peuvent avoir un avantage sur les TDM et l'IRM dans la détection post-opératoire d'ostéomyélite et peuvent être plus utiles dans le suivi des patients sous antibiotiques (15). Le traitement de l'ostéomyélite de la base du crâne est avant tout médical basé sur une antibiothérapie adaptée au germe isolé et guidée par un antibiogramme.

La durée totale d'antibiothérapie est variable dans la littérature, mais une durée minimale de 1 mois est recommandée, prolongée jusqu'à 6 mois pour certains auteurs. L'Unité d'infection osseuse à Oxford, Royaume-Uni, recommande souvent jusqu'à 6 semaines de traitement par voie intraveineuse relayée par 6 à 12 mois de médicaments par voie orale, guidé par la réponse clinique. L'adjonction d'une oxygénothérapie hyperbare a été recommandée par certains (16). Le traitement chirurgical est réservé principalement pour le débridement de l'os nécrosé et des tissus inflammatoires, la biopsie et la culture (17). Pour certains auteurs la conjonction d'un tableau clinique typique et des résultats de l'imagerie ainsi qu'une réponse positive à la ciprofloxacine, ne nécessite pas de confirmation histologique (18). Pour beaucoup d'autres auteurs, la sphénoïdectomie a permis de stopper l'évolution de la maladie (19-24). Nous avons réalisé une sphénoïdectomie d'emblée dans les deux cas que nous rapportons et ce geste chirurgical a été suivi d'une régression rapide de la symptomatologie clinique. Le pronostic de l'ostéomyélite de la base du crâne est sévère avec une guérison complète dans 60% des cas pour les ostéites d'origine otogène et un pronostic plus réservé avec une guérison dans 30% des cas environ pour les ostéites d'origine sinusienne. Les complications comprennent la thrombose du sinus latéral et de la veine jugulaire interne, la méningite, une ophtalmoplogie, la cécité et la paralysie des nerfs crâniens.

CONCLUSION

L'ostéomyélite d'origine sinusienne est une pathologie rare. Ce diagnostic est rare et difficile à porter; il mérite une attention particulière par la gravité du tableau clinique et le taux de mortalité important.



REFERENCES

1. Stauffer RN. Pyogenic vertebral osteomyelitis. *Orthop Clin North Am* 1975;6:1015-27.
2. Steinhart H., Schulz S, Mutters R. Evaluation of ozonated oxygen in an experimental animal model of osteomyelitis as a further treatment option for skull base osteomyelitis. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 1999;256:153-7.
3. Rothholtz VS, Lee AD, Shamloo B et al (2008) Skull base osteomyelitis: the effect of comorbid disease on hospitalization. *Laryngoscope* 118:1917-1924
4. CHANDLER JR, GROBMAN L, QUENCER R, SERAFINI A. Osteomyelitis of the base of the skull. *Laryngoscope* 1986;96:245-51.
5. SREEPADA GS, KWARTLER JA. Skull base osteomyelitis secondary to malignant otitis externa. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;11:316-23.
6. MENDELSON DS, SOM PM, MENDELSON MH, PARISIERS SC. Malignant external otitis: the role of computed tomography and radionuclide evaluation. *Radiology* 1983;149:745-9.
7. LEVENSON MJ, PARISIERS SC, DOLITSKY J, BINDRA G. Ciprofloxacin: drug of choice in the treatment of malignant external otitis. *Laryngoscope* 1991;101:821-4.
8. MALONE DG, O'BOYNICK PL, ZIEGLER DK, BATNITZKY S, HUBBLE JP, HOLLADAY FP. Osteomyelitis of the skull base. *Neurosurgery* 1992;30:426-31.
9. CHANG PC, FISCHBEIN NJ, HOLLIDAY RA. Central skull base osteomyelitis in patients without otitis externa: imaging findings. *Am J Neuroradiol* 2003;24:1310-6.
10. DUCIC Y. Management of osteomyelitis of the anterior skull base and craniovertebral junction. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2003;128:39-42.
11. Clark MP, Pretorius PM, Byren I et al (2009) Central or atypical skull base osteomyelitis: diagnosis and treatment. *Skull Base* 19:247-254
12. Laurens MB, Becker RM, Johnson JK et al (2008) MRSA with progression from otitis media and sphenoid sinusitis to clival osteomyelitis, pachymeningitis and abducens nerve palsy in an immunocompetent 10-year-old patient. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 72:945-951
13. Sreepada GS, Kwartler JA (2003) Skull base osteomyelitis secondary to malignant otitis externa. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 11:316-323
14. Malone DG, O'Boynick PL, Ziegler DK, et al. Osteomyelitis of the skull base. *Neurosurgery* 1992;30:426-31.
15. Seabold JE, Simonson TM, Weber PC, et al. Cranial osteomyelitis: diagnosis and follow-up with In-111 white blood cell and Tc-99m methylene diphosphonate bone SPECT, CT, and MR imaging. *Radiology* 1995;196:779-788
16. Davis JC, Gates GA, Lerner C, Davis MG Jr, Mader JT, Dinesman A. Adjuvant hyperbaric oxygen in malignant external otitis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1992; 118:89-93
17. Vissosky AM, Isaacson B, Oghalai JS (2006) Circumferential petrosalotomy for petrous apicitis and cranial base osteomyelitis. *Otol Neurotol* 27:1003-1013
18. Cavel O, Fliss DM, Segev Y, Zik D, Khafif A, Landsberg R. The role of the otorhinolaryngologist in the management of central skull base osteomyelitis. *Am J Rhinol* 2007;21(3):281-285
19. P.A. Clement, C.D. Bluestone, F. Gordts, R.P. Lusk, F.W. Otten, H. Goossens, G.K. Scadding, H. Takahashi, F.L. van Buchem, C.P. Van, et al., Management of rhinosinusitis in children: consensus meeting, Brussels, Belgium, September 13, 1996. *Arch. Otolaryngol. Head Neck Surg.* 124 (January(1)) (1998) 31-34.
20. D. Gilony, Y.P. Talmi, L. Bedrin, Y. Ben-Shoshan, J. Kronenberg, The clinical behavior of isolated sphenoid sinusitis, *Otolaryngol. Head Neck Surg.* 136 (4) (2007) 610-615.
21. B.A. Uren, R.G. Berkowitz, Isolated inflammatory sphenoid sinus disease in children, *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.* 112 (4)(2003) 370-372.
22. L.A. Hnatuk, R.E. Macdonald, B.C. Papsin, Isolated sphenoid sinusitis: the Toronto Hospital for Sick Children experience and review of the literature, *J. Otolaryngol.* 23 (1) (1994) 36-41.
23. H.K. Tan, Y.K. Ong, Acute isolated sphenoid sinusitis, *Ann. Acad. Med. Singapore* 33 (5) (2004) 656-659.
24. E. Lahat, J. Danieli, H. Cohen, G. Paret, A. Barzilai, Acute isolated sphenoid sinusitis in children, *Pediatr. Infect. Dis. J.* 16 (12) (1997) 1180-1182.