

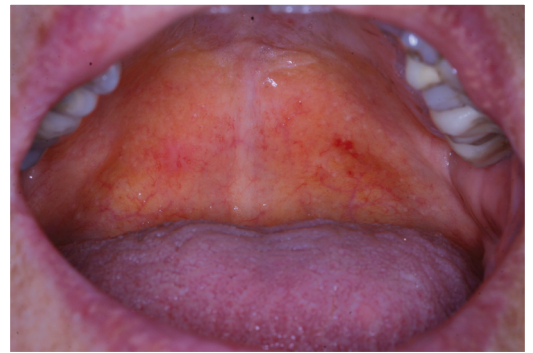
Jacky Samson, Marc El Hage,
Tommaso Lombardi

Division de Stomatologie et Chirurgie orale,
19 rue Barthélemy-Menn, 1205 Genève, Suisse
jacky.samson@unige.ch

Ne vous fiez pas toujours à l'âge !

Une patiente, âgée de 68 ans, sans antécédents particuliers et en bonne santé, est adressée par son médecin traitant pour une lésion vélaire évoluant depuis quelques jours. L'examen endo-buccal montrait une plage érythémateuse, para-médiane droite, arrondie, à limites nettes et irrégulières, mesurant 7 mm de diamètre ; en périphérie, on observait des vaisseaux dilatés ramifiés ou simulant des petits angiomes stellaires. Il existait une autre lésion sur l'hémi-voile gauche, grossièrement symétrique, plus discrète et plus étendue, également associée en périphérie à des vaisseaux dilatés. L'examen a permis de découvrir une ulcération superficielle, à grand axe transversal, mesurant 6 x 2 mm, recouverte d'un enduit fibrino-leucocytaire, centrée sur le frein de la langue, en arrière des caroncules sublinguales, entourée d'une large plage érythémateuse homogène. La patiente semblait ignorer l'existence de cette ulcération. Lors de la protraction de la langue, on pouvait remarquer que la forme de l'ulcération correspondait exactement à celle de la partie interne du bord incisif de ses deux incisives centrales inférieures, qui présentaient une discrète rotation interne.

Après lui avoir montré, dans un miroir, la position de l'ulcération lorsque la langue est en protraction, il fut relativement facile de lui suggérer en quelques mots l'étiologie de cette ulcération. A partir de là, il fut également facile de lui faire comprendre que les lésions vélaire, équivalents à minima d'aptes de Bednar, étaient secondaires à un autre type de rapport sexuel. Le silence qui s'en suivit fut considéré comme une confirmation de l'étiologie évoquée. L'évolution a été rapidement favorable après avoir invité la patiente à une certaine modération fonctionnelle.



Commentaires

En 1857, Antonio Cardarelli décrit une affection dénommée ultérieurement afta cachettica mais c'est Antonio Riga qui fit la première description remarquée, en 1881, en rapportant quelques cas d'ulcération sur la face ventrale de la pointe de la langue chez des nouveau-nés présentant une incisive congénitale ou néo-natale. En 1890, Francesco Fede, en publiant de nouveaux cas, fit la description histologique princeps de cette ulcération, due à un traumatisme répété sur le bord incisif de la dent présente. On donna naturellement à cette entité le nom de maladie Riga (-Fede), mais bien d'autres noms furent proposés : subglossite diphtéroïde, granulome sublingual, tumeur sublinguale de l'enfant, ulcère à éosinophiles, granulome traumatique ulcéré à éosinophiles (traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia ou TUGSE)... [1]. Cette profusion de termes traduit la confusion qui a pu exister alors que l'étiologie n'était pas contestée. La maladie de Riga-Fede est un ulcère à éosinophiles, d'origine traumatique, localisé sur la face ventrale de la pointe de la langue ou le plancher buccal antérieur (selon l'amplitude de la protraction linguale et la longueur du frein de la langue). On peut quelquefois observer sur la muqueuse buccale (surtout la langue) des ulcères à éosinophiles le plus souvent d'origine traumatique, décrits par certains auteurs sous le terme de maladie de Riga-Fede. En vain, Elzay a proposé, en 1983, d'employer le terme de TUGSE pour désigner l'ensemble de ces lésions [2] mais de nombreux auteurs continuent à utiliser le terme de maladie de Riga-Fede plutôt que celui de TUGSE.

Il serait peut-être bon de réserver le terme de maladie de Riga-Fede pour les lésions de la face ventrale de la langue et du plancher buccal antérieur, secondaires à un traumatisme

répété sur le bord des incisives inférieures, car leur étiologie et leur diagnostic sont faciles à préciser. Avec cette définition, la maladie de Riga-Fede est toujours secondaire à un traumatisme sur le bord des incisives inférieures. Il reste à préciser les conditions : dents congénitale(s) ou néonatale(s), dent(s) lactéale(s) au bord incisif agressif, tumeurs chroniques (jadis enfants atteints de la diphtérie ou de la coqueluche, sujets bronchitiques chroniques), neuropathies sensitives congénitales (syndrome de Lesch-Nyhan, syndrome de Gilles de la Tourette, insensibilité congénitale ou acquise à la douleur, dysautonomie familiale ou syndrome de Riley-Day, encéphalite néo-natale, microcéphalie...), cunnilingus ou pratique comparable.

La maladie de Riga-Fede se traduit par une ulcération douloureuse, le plus souvent arrondie, mesurant de quelques mm à 2-3 cm de diamètre, recouverte par un enduit fibrino-leucocytaire. Sa localisation correspond à la zone de contact de la langue ou du plancher buccal avec le bord des incisives centrales inférieures lors de la protraction linguale forcée ; sa localisation sur la face ventrale de la pointe de la langue ou sur le plancher buccal antérieur dépend de la longueur du frein de la langue. L'ulcération est initialement superficielle mais, si le traumatisme persiste (quelques mois dans certains cas), elle tend à devenir creusante avec des bords surélevés et fermes, voire exophytiques. Dans la maladie de Riga-Fede et dans le TUGSE, l'ulcération repose sur un infiltrat inflammatoire polymorphe dense, constitué principalement de lymphocytes, riche en polynucléaires éosinophiles dont certains sont en dégranulation, avec des macrophages, quelques plasmocytes et, dans de nombreux cas, de grandes cellules mononucléées atypiques ressemblant à des histiocytes. Cet infiltrat, siégeant dans le chorion, envahit les espaces entre les fibres musculaires superficielles [2,3,6]. L'atteinte musculaire entraînerait la libération des cytokines exerçant un chimiotactisme pour les polynucléaires éosinophiles. Les grandes cellules mononucléées sont en réalité des lymphocytes CD30+. Pour certains auteurs, le TUGSE pourrait être l'équivalent d'affections cutanées lymphoprolifératives CD30+ primitives [3] ; cette hypothèse ne peut être envisagée pour la maladie de Riga-Fede

qui est manifestement d'origine traumatique mais il existe quelques cas de TUGSE où on a retrouvé une prolifération monoclonale faisant suspecter une maladie lymphoproliférative.

Chez l'enfant et l'adulte, le diagnostic de maladie de Riga-Fede est facilement évoqué lorsque cette entité est connue. L'évolution favorable après suppression de la cause (extraction de la dent, polissage du bord incisif...) évite le plus souvent le recours à la biopsie.

Dans la littérature récente, on ne retrouve pas de cas de maladie de Riga-Fede secondaire à la pratique du cunnilingus ou d'une activité comparable, alors que ceci est documenté dans certains traités de la spécialité [4,5]. Le cas rapporté présente la particularité d'associer une maladie de Riga-Fede, secondaire à la pratique d'une activité comparable à celle du cunnilingus, à des lésions vélaires dues à une fellation.

Références

1. CHOI SC, PARK JH, CHOI YC, KIM GT. Sublingual traumatic ulceration (a Riga-Fede disease): report of two cases. *Dent Traumatol* 2009;25:48-50.
2. ELZAY RP. Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia (Riga-Fede's disease and traumatic eosinophilic granuloma). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1983;55:497-506.
3. HIRSHBERG A, AMARIGLIO N, AKRISH S, YAHALOM R, ROSENBAUM H, OKON E, KAPLAN I. Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia. A reactive lesion of the oral mucosa. *Am J Clin Pathol* 2006;126:522-9.
4. KUFFER R, LOMBARDI T, HUSSON-BUI C, COURRIER B, SAMSON J. La muqueuse buccale : de la clinique au traitement. *Aphtes de Bednar (Fig. 08.17) et ulcère à éosinophiles (Fig. 08.20)*. *Med'Com*, Paris, 2009.
5. SCULLY C, FLINT S. *An atlas of stomatology. Cunnilingus tongue (Fig. 9.230) et fellatio palate (Fig. 9.231)*. Martin Dunitz, London, 1989.
6. TAGHI A, MOTAMEDI MHK. Riga-Fede disease: a histological study and case report. *Indian J Dent Res* 2009;20:227-9.