Observation clinique

Un cas de stomatite nécrosante : noma des pays riches ?

Sylvain Catros^{1,2,*}, Marine Prudence¹, Sébastien Lérici¹, Jean-Christophe Fricain^{1,2}

¹ Pôle d'Odontologie et de Santé buccale, CHU, Bordeaux, France

² Bioingénierie tissulaire, U1026, Université, Bordeaux, France

(Reçu le 29 septembre 2013, accepté le 15 décembre 2013)

Mots clés :

stomatite nécrosante /
méthotrexate / gingivite
ulcéro-nécrotique /
noma

Résumé – Introduction : Il existe très peu de cas publiés de stomatites nécrosantes massives chez des patients immunodéprimés et aucun dans le cadre d'un traitement par méthotrexate (MTX). Le cas rapporté décrit une stomatite nécrosante sévère avec exfoliations dentaires spontanées chez une patiente immunodéprimée. **Observation :** Une femme de 45 ans, traitée par MTX et infliximab, a développé des ulcérations buccales, suggérant une toxicité du MTX. Malgré l'arrêt du MTX, les ulcérations se sont étendues, entraînant une nécrose osseuse avec exfoliation spontanée de plusieurs dents maxillaires. Une antibiothérapie probabiliste et une nutrition parentérale ont été instaurées, ce qui a permis une amélioration rapide de l'état général. Un mois plus tard, l'exposition osseuse concernait le tiers antérieur du palais et une partie de la mandibule. Les séquestres osseux ont été progressivement réséqués pour obtenir une fermeture muqueuse complète après 19 mois. Les prélèvements bactériens ont montré la présence de *Pseudomonas aeruginosa* et l'examen histopathologique des séquestres osseux a confirmé le processus de nécrose. **Discussion :** Le contexte de dénutrition et l'évolution favorable après mise en place de la nutrition parentérale et de l'antibiothérapie évoquent une forme de noma où il n'y aurait pas eu d'évolution vers les tissus mous musculo-cutanés du voisinage.

Key words:

necrotizing stomatitis /
methotrexate /
necrotizing ulcerative
gingivitis / noma

Abstract – A case of necrotizing stomatitis: noma of the rich countries? Introduction: There are few cases of massive necrotizing stomatitis in immuno-compromised patients described in the literature and methotrexate has not been observed to induce such clinical manifestations. We report the case of a severe necrotizing stomatitis, including spontaneous dental exfoliations in an immuno-compromised patient. **Case report:** A 45-year-old female patient, treated by methotrexate (MTX) and infliximab, has developed oral mucosa ulcerations, suggesting a toxicity of MTX. Even if MTX was stopped, ulcerations have increased, leading to underlying bone necrosis along with spontaneous exfoliation of several maxillary teeth. Broad-spectrum antibiotherapy and parenteral nutrition have been established, which lead to a quick amelioration of general condition. One month later, bone exposure concerned the anterior part of palate and mandible. Bone sequestrums have been progressively removed and a complete mucosal closure was observed after 19 months. Bacterial swabs have revealed the presence of *Pseudomonas aeruginosa* and histopathological examination showed evidence of bone necrosis. **Discussion:** The medical history of denutrition and the clinical aspect of the lesions are close to the classical description of noma even if no extent towards soft tissues was observed.

Introduction

Les nécroses tissulaires de la cavité buccale peuvent concerner la muqueuse et le tissu osseux. Plusieurs étiologies et différents mécanismes physiopathologiques ont été décrits.

Dans les pays développés, les nécroses muqueuses s'observent le plus souvent dans les gingivites ulcéro-nécrotiques ou les parodontites ulcéro-nécrotiques. Ce sont des atteintes infectieuses du parodonte liées à des bactéries de la flore

buccale commensale, devenant pathogènes opportunistes chez un hôte qui est le plus souvent immunodéprimé et fumeur. Ces lésions répondent en général bien à un traitement antibiotique adapté et à un geste local de débridement des lésions et d'élimination des facteurs étiologiques [1]. Les nécroses osseuses des maxillaires représentent le plus souvent une complication des traitements par biphosphonates administrés par voie intra-veineuse en cancérologie [2, 3]. Le mécanisme exact de l'apparition de ces nécroses osseuses est

* Correspondance : sylvain.catros@u-bordeaux2.fr

Fig. 1. Situation initiale : nécrose de la muqueuse palatine et vestibulaire, exfoliation dentaire spontanée.
Fig. 1. Initial clinical aspect: necrosis of vestibular and palatal mucosa, spontaneous dental exfoliation.

encore mal compris, mais l'altération du renouvellement osseux induite par les biphosphonates pourrait être en cause [4, 5]. Des nécroses osseuses sont observées après la radiothérapie cervico-faciale ; la modification du tissu osseux secondaire aux rayonnements ionisants [hypocellularité, hypovascularisation, hypoxie] le rend plus vulnérable aux phénomènes infectieux et altère le remodelage osseux [6]. Les ostéites de cause infectieuse peuvent également aboutir à des ostéonécroses.

Dans les pays en développement, les ostéonécroses concernent presque exclusivement les enfants malnutris, vivant dans un contexte d'extrême pauvreté. Certains cas évoluent vers le noma qui est une gangrène faciale pouvant s'étendre aux tissus extra-oraux, causant la destruction des tissus mous et durs. Sans traitement approprié, le noma est mortel pour la majorité des patients [7]. Cette forme sévère de nécrose faciale est peu observée dans les pays développés. Quelques cas de stomatites nécrosantes chez des patients adultes présentant d'importants désordres immunologiques et nutritionnels ont été décrits. Nous rapportons le cas d'une patiente ayant présenté une stomatite nécrosante après l'administration de MTX et de glucocorticoïdes dans un contexte d'immunodépression et de dénutrition.

Observation

Une femme de 45 ans a été admise dans le service de médecine interne et maladies infectieuses (Hôpital Haut Lévêque, CHU, Bordeaux) en mai 2011, pour une altération de l'état général associé avec un état fébrile.

Son histoire médicale comportait une connectivite mixte non-étiquetée avec une atteinte multifocale (polyarticulaire, pulmonaire, vasculaire, digestive, neurologique, cardiaque et hématologique), un diabète cortico-induit traité par insuline,

ainsi qu'une surdité de perception bilatérale. Elle présentait également un état de dénutrition, elle pesait 38 kg, avec un indice de masse corporelle égal à 15. Le traitement de la connectivite a été réévalué plusieurs fois entre 2009 et 2011. En janvier 2009, la patiente avait reçu un traitement par corticoïdes (Solumedrol®), relayé par cyclophosphamide (Endoxan®). En juillet 2009, elle a bénéficié d'un traitement par mycophénolate mofétil (Cellcept®) afin de mieux contrôler la vascularite, et un anticorps monoclonal anti-CD20 (Rituximab®) a été introduit en août 2009. En octobre 2009, le Cellcept® a été remplacé par de l'acide mycophénolique (Myfortic®) à cause d'une intolérance digestive. Enfin, à partir de février 2011, la patiente a reçu un traitement par MTX [20 mg par semaine] et un anticorps monoclonal (Remicade®) a à nouveau été introduit en mars 2011.

Lors de la première consultation odontologique en mai 2011, la patiente présentait des ulcérations surinfectées de la muqueuse buccale, une nécrose extensive de la muqueuse palatine et vestibulaire, associées à une mobilité et une exfoliation spontanée de plusieurs incisives maxillaires (Fig. 1). Il n'existait pas d'extension exo-buccale des lésions, en dehors d'une pansinusite compliquée d'une ethmoïdite, qui ont été révélées par le CTscan et l'IRM. Le bilan sanguin montrait une anémie (8,4 g/dL), une hyperleucocytose à polynucléaires neutrophiles ($22 \times 10^3/\text{mm}^3$) et une augmentation de la protéine C réactive (355 mg/L). La glycémie et l'HbA1c étaient normales. La tension artérielle était de 108/75 mmHg et le rythme cardiaque à 120 pulsations par minute. Les prélèvements sinusiens ont montré une surinfection à *Pseudomonas aeruginosa*. Les examens radiologiques de la sphère oro-faciale n'étaient pas contributifs à ce stade. Les vitamines B1, B6, B9 (folates) et B12 ont été dosées chez la patiente pendant toute la durée de la prise en charge et on a noté des carences ponctuelles de ces vitamines au cours des 19 mois du suivi. Ces carences ont été systématiquement supplémentées.

Fig. 2. Après 1 mois d'évolution, décollement de la muqueuse palatine et exposition de l'os alvéolaire maxillaire (Fig. 2, haut). Résection de la muqueuse nécrotique (Fig. 2, bas).

Fig. 2. After 1 month, the palatal mucosa is detached and maxillar alveolar bone is exposed. Necrotic mucosa was removed.

Le diagnostic de stomato-toxicité au MTX surinfectée par *Pseudomonas aeruginosa*, aggravée par un état de dénutrition, a été posé. Le traitement médical a consisté en une antibiothérapie associant ceftazidime (Fortum®), vancomycine, métronidazole (Flagyl®) et aminoside (Amiklin®) qui a été relayé après 48 h par de la ciprofloxacine (Ciflox®). La patiente a également bénéficié d'un traitement antiviral – valaciclovir (Zelitrex®) – et antifongique – fluconazole (Triflucan®) – préventif. Le MTX et le Remicade® ont été arrêtés du fait de leur implication supposée dans l'apparition des lésions buccales. Une nutrition par voie parentérale a été mise en place afin de pallier les carences de la patiente, ainsi qu'une insulinothérapie par Novarapid®. Pour le traitement de la connectivite, la patiente a reçu 40 mg/j de prednisone. Localement, les lésions ont été débridées, puis la patiente a effectué des bains de bouche à base de polyvidone iodée (Bétadine®) 3x/j et des applications de xylocaïne visqueuse.

Un mois après l'arrêt du MTX et du Remicade®, la patiente a été revue en contrôle. Elle était toujours traitée par prednisone (37,5 mg/j) pour sa connectivite. Le bilan biologique était en voie de normalisation, avec une hémoglobine à 11,9 g/dL et une hyperleucocytose à $12,6 \times 10^3/L$. Au maxillaire, l'examen montrait un décollement de la muqueuse

palatine et vestibulaire s'étendant de la deuxième prémolaire droite à la deuxième molaire gauche, avec une exposition de l'os sous-jacent (Fig. 2). Les canines maxillaires présentaient une mobilité de type 3 [8]. À la mandibule, la muqueuse était nécrosée autour des deux molaires droites. L'os exposé était d'aspect nécrotique, sans saignements ni séquestration. La patiente rapportait une dysphagie. Malgré une amélioration des signes fonctionnels, on observait une nécrose osseuse massive. La résection chirurgicale étendue de l'os nécrotique n'a pas été pratiquée à ce stade du fait de la corticothérapie en cours qui aurait pu retarder la cicatrisation. Un débridement des tissus muqueux nécrotiques a été néanmoins réalisé (Fig. 2).

Trois mois après la consultation initiale, la patiente a commencé à diminuer sa dose de corticoïdes pour arriver à une dose de 25 mg/j. On notait une amélioration de l'état général avec une prise de poids de 5 kg. Les lésions buccales étaient stabilisées mais on observait toujours une absence de couverture muqueuse, une exposition osseuse persistante et la mobilité de plusieurs dents (Fig. 3). Malgré l'étendue de l'exposition osseuse, la patiente ne rapportait pas de douleurs. Il a été décidé de pratiquer une résection des tissus nécrotiques *a minima* en vue de réaliser une prothèse amovible partielle

Fig. 3. Après 3 mois d'évolution, absence de cicatrisation spontanée et persistance de l'exposition osseuse.
Fig. 3. No spontaneous healing was observed after 3 months.

Fig. 4. a : résection de l'os nécrotique et mise en évidence d'une communication bucco-sinusienne (3 mois) ; b : examen histopathologique de l'os réséqué montrant la nécrose osseuse et la surinfection par Actinomyces.
Fig. 4. a: resection of necrotic bone and observation of an oro-sinus fistula (3 months); b: histology of bone harvested revealing bone necrosis and actinomycosis infection.

car l'état général de la patiente ne permettait pas d'envisager une exérèse large avec une reconstruction. Les dents situées dans la zone de nécrose ont été extraites et l'os alvéolaire remodelé à la fraise. Lors de ce remodelage chirurgical, une communication bucco-sinusienne est apparue (Fig. 4). Des prélèvements osseux et des écouvillonnages bactériens ont été réalisés. L'examen histopathologique a confirmé la présence

d'un os nécrotique comprenant des foyers d'actinomycose et l'examen bactériologique a révélé la présence de *Pseudomonas aeruginosa* et *Serratia marescens*. Une prothèse obturatrice reposant en partie sur l'os nécrosé a été réalisée.

Un an plus tard, la décroissance de la corticothérapie a été poursuivie et l'insulinothérapie stoppée. La glycémie et l'HbA1c étaient normales mais le syndrome inflammatoire

Fig. 5. Après 19 mois d'évolution, cicatrisation de la muqueuse mandibulaire et maxillaire et persistance de la communication bucco-sinusienne fermée par une prothèse obturatrice. Radiographie panoramique montrant l'importance des pertes osseuses et dentaires.

Fig. 5. After 19 months, mandibular and maxilla mucosa has healed but an oral-sinusual communication is still present but closed by the prosthesis; panoramic radiograph showing the loss of alveolar bone and teeth.

persistait. La patiente présentait toujours une exposition osseuse palatine et un séquestre osseux rétro-molaire mandibulaire ; ces lésions étaient asymptomatiques. Au niveau de la communication bucco-sinusienne, des épisodes d'écoulements purulents sont apparus. Ils ont été traités par une antibiothérapie associant l'imipénème (Tienam®) et la ciprofloxacine (Ciflox®) pendant 15 j bien qu'ils aient cessé après 4 j de traitement. Les bains de bouche bi-quotidiens à base de chlorhexidine gluconate à 0,12 % (Eludril®) ont été poursuivis. Le traitement de la connectivite comportait toujours une corticothérapie (20 mg/j), ce qui contre-indiquait une intervention chirurgicale invasive pour éliminer l'os nécrosé et réaliser une reconstruction.

Après 18 mois, un séquestre osseux s'est individualisé à la mandibule ; il s'est éliminé spontanément. Au maxillaire antérieur, on a procédé à l'ablation d'un séquestre osseux devenu très mobile. Un mois plus tard, la cicatrisation muqueuse était complète au maxillaire et à la mandibule. La persistance de la communication bucco-sinusienne était accompagnée d'écoulements purulents épisodiques bien tolérés, probablement en rapport avec la présence d'une bactérie multi-résistante. À ce

stade, la radiographie panoramique montrait la perte de substance osseuse au maxillaire et à la mandibule (Fig. 5). Les prothèses amovibles ont été refaites afin de redonner une esthétique et une fonction orale satisfaisantes à cette patiente.

Discussion

Nous rapportons ici un cas de stomatite nécrosante apparue chez une patiente dénutrie, qui avait reçu plusieurs traitements immunosuppresseurs, dont le MTX. Les nécroses muqueuses et osseuses concernaient la majeure partie du maxillaire et une partie étendue de la mandibule. Après le débridement des lésions et l'élimination des séquestres osseux, la fermeture muqueuse complète a été obtenue 19 mois après l'apparition des lésions. Il existe peu de cas de stomatites nécrosantes en rapport avec le MTX rapportés dans la littérature. Il s'agit le plus souvent de patients dénutris ou immunodéprimés [9-11].

Par certains aspects, le cas rapporté ressemble à un noma. La patiente était dénutrie de façon chronique et immunodéprimée du fait de son traitement. Les nécroses muqueuses et osseuses sont apparues rapidement et elles étaient d'emblée étendues, intéressant l'ensemble du palais dur et une partie de la mandibule. La fermeture muqueuse a été obtenue après 19 mois d'évolution, comportant plusieurs interventions de débridements et de résection osseuse. Une antibiothérapie à large spectre a également été administrée pendant plusieurs mois pour contrôler la surinfection. Enfin, la flore bactérienne observée présentait des similarités avec celle retrouvée habituellement dans le noma [7]. Cependant, le cas rapporté diffère de la description « classique » du noma. En effet, il s'agissait d'une femme adulte alors que le noma touche préférentiellement les enfants. Il n'a pas été retrouvé d'infection virale précédant l'apparition des lésions comme c'est fréquemment le cas dans le noma. La flore bactérienne était différente de celle retrouvée habituellement dans le noma. Les lésions étaient uniquement endo-buccales avec une atteinte de la muqueuse et de l'os alvéolaire maxillaire et mandibulaire. Les muqueuses jugales et labiales n'ont pas été touchées, ce qui peut expliquer qu'aucune lésion transfixiante cutanée ne soit apparue chez cette patiente. Cependant, la prise en charge précoce et l'antibiothérapie massive administrée par voie parentérale ont probablement contribué à limiter l'extension des lésions nécrotiques. Enfin, la principale différence avec le noma est liée au caractère iatrogène de l'apparition des lésions dans notre cas, en rapport avec le traitement immunosuppresseur (probablement le MTX) reçu par cette patiente.

Le MTX à faible dose (jusqu'à 25 mg/semaine) est surtout utilisé dans le traitement de la polyarthrite rhumatoïde. Les effets indésirables généraux les plus fréquents sont dus à une toxicité gastro-intestinale (nausées, vomissements, diarrhées), une toxicité hépatique et plus rarement à une aplasie médullaire. Le MTX interfère avec le métabolisme des folates ; la supplémentation permet habituellement de limiter les effets du traitement, notamment l'apparition d'une stomatite [12]. Au niveau de la cavité buccale, on retrouve des signes fonctionnels (douleurs) et des ulcérations muqueuses chez les patients traités par MTX [13] : celles-ci concernent 14 % des patients et 3 % des patients traités arrêtent le traitement du fait de ces ulcérations. Ces effets indésirables sont dose-dépendants et régressent à l'arrêt du traitement [13]. Les ulcérations de la muqueuse buccale liées à la prise de MTX à faible dose peuvent faire suite à un traitement au long cours mais elles sont également souvent rencontrées dans le cas d'un surdosage du traitement (erreur de prescription ou d'observance) [14]. Même si les effets indésirables du MTX sur la cavité buccale sont en général bien contrôlés [15], plusieurs cas de stomatites nécrosantes liés à la prise de MTX pour le traitement de la polyarthrite rhumatoïde ont déjà été rapportés [13, 16]. Il s'agissait essentiellement d'ulcérations muqueuses profondes. Un autre cas a été observé chez un jeune patient atteint

de leucémie aiguë traité entre autres avec du MTX [11] : il s'agissait de lésions nécrotiques extensives situées sur le palais dur, le palais mou et les piliers du voile.

L'apparition d'une stomatite nécrosante constitue parfois le signe d'appel d'une leucémie aiguë du fait de la neutropénie associée [10], mais ces lésions peuvent également être exacerbées par les traitements entraînant des aplasies médullaires. Ainsi, des cas de stomatites nécrosantes ont été rapportés lors de neutropénies liées à des leucémies ou des lymphomes ainsi que lors de leurs traitements [10, 11, 17, 18]. Les lésions peuvent apparaître avant ou pendant le traitement, mais elles sont toujours en rapport avec une neutropénie sévère. Un cas de stomatite nécrosante avec une exposition osseuse localisée au maxillaire a été rapporté chez un patient ayant développé une agranulocytose avec une neutropénie majeure après un traitement par déféprone (traitement de la β -thalassémie majeure) [19].

Chez les malades du sida, de nombreuses lésions de la muqueuse buccale peuvent apparaître au cours de la maladie et elles sont corrélées avec la progression de l'immunodépression [20]. Les gingivites et les parodontites ulcéro-nécrotiques sont ainsi fréquemment observées dans ce contexte et elles sont parfois le signe révélateur de la maladie [21]. Ces lésions peuvent apparaître lorsque le taux de lymphocytes CD4 est inférieur à 500/mm³ [22]. Le point de départ des lésions est le plus souvent parodontal et une exposition osseuse peut apparaître lors des atteintes sévères [23].

Un cas de stomatite nécrosante a été rapporté chez un patient diabétique avec des lésions localisées essentiellement sur les lèvres [24]. Les auteurs ont souligné le rôle probable du diabète dans l'apparition des lésions, du fait d'une altération de la réponse immunitaire.

Chez notre patiente, il n'a pas été mis en évidence de neutropénie lors de la consultation initiale ni lors du suivi. En revanche, un diabète cortico-induit était présent lors de l'apparition des lésions. La dénutrition et les déficits vitaminiques sont des facteurs d'aggravation de la maladie parodontale et peuvent expliquer l'apparition de nécroses muqueuses et osseuses dans la cavité buccale [25]. La dénutrition est également impliquée directement dans le noma, ainsi que les foyers infectieux parodontaux et l'immunodépression [7]. Notre patiente présentait un état de dénutrition (indice de masse corporelle égal à 15) aggravé par les ulcérations buccales qui gênaient l'alimentation. Les carences d'apport ont pu être majorées par la prise de MTX car ce dernier interfère avec le métabolisme des folates, ce qui pourrait expliquer en partie la sévérité des ulcérations muqueuses. Un cas similaire a été rapporté chez un homme dénutri de 68 ans qui présentait des lésions ulcéro-nécrotiques buccales ainsi que des lésions cutanées lors d'un scorbut [9]. Le lien entre dénutrition et apparition de stomatites nécrosantes peut s'expliquer par un ensemble de modifications fonctionnelles touchant plusieurs tissus avec notamment une altération de

l'immunité, une modification de la flore buccale ou encore une atrophie de la muqueuse buccale [26]. La renutrition se fait le plus souvent par voie parentérale du fait des douleurs buccales et elle doit faire partie de la prise en charge [9, 14].

Une mauvaise hygiène buccale et un état bucco-dentaire très délabré sont souvent observés dans ces cas [26, 27]. Dans les stomatites nécrosantes, il y a le plus souvent une surinfection bactérienne due à des bactéries anaérobies et des spirochètes. Les prélèvements effectués chez notre patiente ont révélé la présence de *Pseudomonas aeruginosa*. Ce bacille gram-négatif a été fréquemment retrouvé dans des cas similaires de stomatites nécrosantes [18, 28, 29] mais aussi dans le noma [7, 30], et plus généralement dans des foyers d'ostéites [31]. Un cas de nécrose muqueuse et osseuse, localisé au maxillaire, présentant une surinfection fongique par *Trichoderma longibrachiatum* a été rapporté chez une femme de 66 ans atteinte d'un lymphome qui présentait une neutropénie sévère. Les lésions buccales étaient apparues 1 mois après le début du traitement et l'infection s'est rapidement généralisée, entraînant le décès de la patiente [17].

La prise en charge de la patiente a comporté un traitement médical pour limiter les surinfections, associé à des gestes locaux (débridement et d'élimination des séquestres osseux). Localement, la patiente a utilisé des bains de bouche à base de polyvidone iodée (Bétadine®) et d'un anesthésique local (xylocaïne visqueuse) pour faciliter l'alimentation. Dans des cas similaires, certains auteurs ont réalisé le débridement et les soins locaux avec du peroxyde d'hydrogène et de la chlorhexidine à 0,12 % [9, 11]. L'antibiothérapie était composée de ceftazidime (Fortum®), de vancomycine, de métronidazole (Flagyl®), d'aminoside (Amiklin®) et de ciprofloxacine (Ciflox®), puis d'imipénème (Tienam®) et de ciprofloxacine (Ciflox®). Cette association avait pour but de lutter contre les germes anaérobies et d'éviter toute surinfection par des germes opportunistes. Une poly-antibiothérapie a été systématiquement prescrite dans tous les cas rapportés : amoxicilline et métronidazole [11], céfuroxime et métronidazole [9], pénicilline et clindamycine [27], pénicilline et céfotaxime [24] ou bien ceftazidime, amikacin, vancomycine et pénicilline G [10].

Les gestes locaux n'ont comporté que des interventions chirurgicales peu invasives, sous anesthésie locale, du fait de l'état général altéré de la patiente et de sa corticothérapie au long cours. Tout ceci explique sans doute pourquoi la fin de la séquestration osseuse et la couverture muqueuse complète ne sont intervenues que 19 mois après le début des lésions. Dans d'autres cas où les lésions étaient plus superficielles et moins étendues, la séquestration s'est faite plus rapidement [19]. Les lésions ont cicatrisé après l'élimination des séquestres osseux et grâce au recouvrement progressif de l'os exposé par bourgeonnement de l'épithélium périphérique. Ceci a également été observé chez une patiente atteinte d'une leucémie aiguë qui avait des nécroses osseuses intra-buccales [11].

Un mois après l'apparition des premiers signes de nécrose, la patiente a perdu ses quatre incisives maxillaires spontanément du fait de la nécrose de l'os alvéolaire et du desmodonte. Des cas d'exfoliation dentaires spontanées similaires ont déjà été décrites après un zona chez des patients immunodéprimés [32] ou non [33]. Des pertes dentaires spontanées liées à une nécrose muqueuse ont également été observées chez un patient atteint d'une leucémie aiguë [10].

Concernant les séquelles, la patiente a perdu une grande partie de ses dents maxillaires, une importante quantité de son os alvéolaire et il persiste une communication bucco-sinusienne fermée par une prothèse obturatrice. Dans plusieurs cas similaires, la perte des dents et de l'os alvéolaire a abouti à des pertes tissulaires conséquentes [19]. Dans un cas, il persistait des séquelles fonctionnelles liées à une limitation de l'ouverture buccale due à la persistance de brides fibreuses [9] comme on peut en observer dans le noma [7]. Dans plusieurs cas de stomatites nécrosantes chez des patients immunodéprimés, le décès est survenu en raison de la progression de la maladie hématologique ou d'une septicémie [17].

Conclusion

Cette forme de noma rencontrée dans les pays développés, chez des adultes immunodéprimés, est rare mais elle ne diffère guère de celle de l'enfant car elle résulte de mécanismes physiopathologiques équivalents. La prise en charge médicale est similaire et la précocité d'une antibiothérapie adaptée permet le plus souvent d'éviter l'apparition de lésions mettant en jeu le pronostic vital du patient, comme on peut l'observer dans la forme classique du noma chez l'enfant.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Horning GM, Cohen ME. Necrotizing ulcerative gingivitis, periodontitis, and stomatitis: clinical staging and predisposing factors. J Periodontol 1995;66:990-8.
2. Gunepin M, Derache F, De Jaureguibery J-P, Bladé J-S, Gisserot O, Cathelinaud O, et al. Ostéonécroses des maxillaires dues aux bisphosphonates administrés par voie intraveineuse : incidence et facteurs de risque. Med Buccale Chir Buccale 2013;19:21-31.
3. McLeod NMH, Brennan PA, Ruggiero SL. Bisphosphonate osteonecrosis of the jaw: a historical and contemporary review. Surgeon 2012;10:36-42.
4. Abi Najm S, Lesclous P, Lombardi T, Bouzouita I, Carrel JP, Samson J. Ostéonécrose des maxillaires dues aux bisphosphonates : mise au point. Med Buccale Chir Buccale 2009;14: 5-18.

5. Abi Najm S, Lesclous P, Lombardi T, Bouzouita I, Carrel JP, Samson J. Ostéonécrose des maxillaires dues aux bisphosphonates (2^e partie) : expérience genevoise. *Med Buccale Chir Buccale* 2009;14:63-84.
6. Marx RE. Osteoradionecrosis: a new concept of its pathophysiology. *J Oral Maxillofac Surg* 1983;41:283-8.
7. Enwonwu CO, Falkler WA Jr, Phillips RS. Noma (cancrum oris). *Lancet* 2006;368:147-56.
8. Lindhe J, Nyman S. Clinical trials in periodontal therapy. *J Periodont Res* 1987;22:217-21.
9. Buchanan JAG, Cedro M, Mirdin A, Joseph T, Porter SR, Hodgson TA. Necrotizing stomatitis in the developed world. *Clin Exp Dermatol* 2006;31:372-4.
10. Da Silva Santos PS, Neri NBD, Chiattonne CS. Noma-like lesion in a patient with acute promyelocytic leukemia. *Rev Bras Hematol Hemoter* 2011;33:321-2.
11. Santos FA, Pochapski MT, Pilatti GL, Kozłowski VA Jr, Goiris FAJ, Groppo FC. Severe necrotizing stomatitis and osteomyelitis after chemotherapy for acute leukaemia. *Aust Dent J* 2009;54:262-5.
12. Shea B, Swinden MV, Tanjong Ghogomu E, Ortiz Z, Katchamart W, Rader T, et al. Folic acid and folinic acid for reducing side effects in patients receiving methotrexate for rheumatoid arthritis. *Cochrane Database Syst Rev* 2013;5:CD000951.
13. Kalantzis A, Marshman Z, Falconer DT, Morgan PR, Odell EW. Oral effects of low-dose methotrexate treatment. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005;100:52-62.
14. Troeltzsch M, von Blohn G, Kriegelstein S, Woodlock T, Gassling V, Berndt R, et al. Oral mucositis in patients receiving low-dose methotrexate therapy for rheumatoid arthritis: report of 2 cases and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;115:e28-33.
15. Ince A, Yazici Y, Hamuryudan V, Yazici H. The frequency and clinical characteristics of methotrexate (MTX) oral toxicity in rheumatoid arthritis (RA): a masked and controlled study. *Clin Rheumatol* 1996;15:491-4.
16. Bauer J, Fartasch M, Schuler G, Schell H. Ulcerative stomatitis as clinical clue to inadvertent methotrexate overdose. *Hautarzt* 1999;50:670-3.
17. Myoken Y, Sugata T, Fujita Y, Asaoku H, Fujihara M, Mikami Y. Fatal necrotizing stomatitis due to *Trichoderma longibrachiatum* in a neutropenic patient with malignant lymphoma: a case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2002;31:688-91.
18. Brady-West DC, Richards L, Thame J, Moosdeen F, Nicholson A. Cancrum oris (noma) in a patient with acute lymphoblastic leukaemia. A complication of chemotherapy induced neutropenia. *West Indian Med J* 1998;47:33-4.
19. Tewari S, Tewari S, Sharma RK, Abrol P, Sen R. Necrotizing stomatitis: a possible periodontal manifestation of deferiprone-induced agranulocytosis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009;108:e13-9.
20. Bodhade AS, Ganvir SM, Hazarey VK. Oral manifestations of HIV infection and their correlation with CD4 count. *J Oral Sci* 2011;53:203-11.
21. Sontakke SA, Umarji HR, Karjodkar F. Comparison of oral manifestations with CD4 count in HIV-infected patients. *Indian J Dent Res* 2011;22:732.
22. Shangase L, Feller L, Blignaut E. Necrotising ulcerative gingivitis/periodontitis as indicators of HIV-infection. *SADJ* 2004;59:105-8.
23. Patton LL, McKaig R. Rapid progression of bone loss in HIV-associated necrotizing ulcerative stomatitis. *J Periodontol* 1998;69:710-6.
24. Evans LM, Lane H, Jones MK. Cancrum oris in a Caucasian male with type 2 diabetes mellitus. *Diabet Med* 2001;18:246-8.
25. Sheetal A, Hiremath VK, Patil AG, Sajjanetty S, Kumar SR. Malnutrition and its oral outcome - a review. *J Clin Diagn Res* 2013;7:178-80.
26. Folyan MO. The epidemiology, etiology, and pathophysiology of acute necrotizing ulcerative gingivitis associated with malnutrition. *J Contemp Dent Pract* 2004;5:28-41.
27. Dachs RJ, Tun Y. Painful oral ulcerations in a 51-year-old woman. *Am Fam Physician* 2009;80:875.
28. Bendl BJ, Padmos A, Harder EJ, McArthur PD. Noma: report of three adult cases. *Australas J Dermatol* 1983;24:115-21.
29. Barasch A, Gordon S, Geist RY, Geist JR. Necrotizing stomatitis: report of 3 *Pseudomonas aeruginosa*-positive patients. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2003;96:136-40.
30. Falkler W, Enwonwu C, Idigbe E. Microbiological understandings and mysteries of noma (cancrum oris). *Oral Dis* 1999;5:150-5.
31. Elouennass M, El Hamzaoui S, Frih M, Zrara A, Chagar B, Ouaaline M. Les aspects bactériologiques des ostéites dans un hôpital universitaire. *Med Mal Infect* 2007;37:802-8.
32. Siwamogstham P, Kuansuwan C, Reichart PA. Herpes zoster in HIV infection with osteonecrosis of the jaw and tooth exfoliation. *Oral Dis* 2006;12:500-5.
33. Lambade P, Lambade D, Saha TK, Dolas RS, Pandilwar PK. Maxillary osteonecrosis and spontaneous teeth exfoliation following herpes zoster. *Oral Maxillofac Surg* 2012;16:369-72.