

Cas clinique et revue de littérature

Tori et exostoses multiples : présentation d'un cas et revue de la littérature

Emilie Hascoet^{1,*}, Pierre Yves Vaillant³, Adrian Tempecul⁴, Caroline Darbin², Cedric Lansonneur¹, Sylvie Boisramé¹

¹ Service d'odontologie, département de chirurgie orale, CHRU Morvan, 5 avenue Foch, 29609 Brest cedex, France

² Service d'odontologie, CHRU Morvan, 5 avenue Foch, 29609 Brest cedex, France

³ Service d'ORL et chirurgie cervico-faciale, HIA Clermont-Tonnerre, rue du Colonel Fonferrier – CC41, 29240 Brest cedex 9, France

⁴ Service d'onco-hématologie, CHRU Morvan, 5 avenue Foch, 29609 Brest cedex, France

(Reçu le 24 juin 2014, accepté le 15 novembre 2014)

Mots clés :
tori / exostoses multiples

Résumé – Introduction : Les exostoses et les tori sont des excroissances osseuses bénignes ayant différentes localisations. Les facteurs intervenant dans leur apparition sont encore discutés. Ces excroissances sont asymptomatiques, mais elles peuvent parfois occasionner différentes gênes. De ce fait, leur exérèse n'est que rarement nécessaire. **Observation :** Il s'agit d'une femme de 58 ans présentant des exostoses et des tori maxillaires et mandibulaires volumineux, associés à un bruxisme aggravé ayant entraîné des attritions occlusales, une baisse de la dimension verticale d'occlusion et des troubles de l'articulation temporo-mandibulaire. Compte tenu du volume des exostoses mandibulaires vestibulaires, une exérèse a été réalisée, associée à la confection d'une plaque de libération occlusale. **Commentaires et conclusion :** Ce cas interroge sur la part imputable aux surcharges occlusales dans l'apparition d'exostoses. Une revue de la littérature a été réalisée afin de valider cette possible étiologie, de comprendre comment améliorer la prise en charge et éviter leur réapparition.

Key words:
tori / multiple exostoses

Abstract – Tori and multiple exostoses: a case report and literature review. Introduction: Exostoses and tori are benign bone protuberances occurring in different locations. The factors affecting their appearance are still being discussed. These protuberances are asymptomatic, but they can sometimes cause discomfort. That is why, in some cases, resective surgery is necessary. **Clinical observation:** We report the case of a 58-year-old woman with massive maxillary and mandibular tori and exostoses. These manifestations were associated with intense bruxism. They resulted in tooth attrition, a decrease in vertical dimension occlusion and temporomandibular joint disorders. In view of the massive vestibular mandibular exostoses, resective surgery was carried out, combined with occlusal splint-making. **Discussion and conclusion:** This case questioned the connection between occlusal overload and exostoses development. A literature review was carried out to show possible etiologies and to understand how to improve dental care and avoid their reappearance.

Introduction

Les exostoses et les tori sont des excroissances osseuses, non néoplasiques, bénignes, asymptomatiques, évoluant lentement dans le temps et ayant différentes localisations. On parle alors de torus ou tori palatins (TP) s'ils sont situés le

long de la crête longitudinale du palais dur, de tori mandibulaires (TM) s'ils sont situés sur la face linguale de la mandibule au-dessus de la ligne mylo-hyoïdienne, dans la région canine pré-molaire et les exostoses, moins fréquentes, sont retrouvées au niveau maxillaire et ou mandibulaire en dehors des zones sus-citées. La muqueuse recouvrant ces protubérances est

* Correspondance : emilie.hascoet1@gmail.com



Fig. 1. Examen tomodensitométrique préopératoire montrant les tori mandibulaires linguaux, les exostoses vestibulaires maxillaires et vestibulaires mandibulaires avant l'intervention.

Fig. 1. Preoperative axial CT sections showing lingual mandibular tori, vestibular maxillary and vestibular mandibular exostoses before surgical procedure.

hypovascularisée et fine [1]. La plupart des patients n'ont que tardivement conscience d'avoir des tori, ils sont souvent diagnostiqués lors d'un examen de contrôle.

Nous rapportons le cas d'une patiente suivie pour un lymphome cutané primitif à cellules T depuis plus de 20 ans et présentant en parallèle d'importantes et nombreuses exostoses maxillo-mandibulaires depuis 15 ans environ. Nous avons confronté notre observation à celle de la littérature quant aux étiologies possibles, aux conséquences et à la prise en charge.

Observation

Il s'agit d'une femme de 58 ans, adressée dans le département de chirurgie orale du CHRU de Brest par les services d'ORL et d'hématologie pour des exostoses maxillaires et mandibulaires bilatérales.

L'examen du dossier médico-chirurgical révélait un lymphome cutané primitif à cellules T, connu aussi sous le nom de mycosis fongoïde, pris en charge depuis plus de 20 ans et récidivant. La patiente a été traitée par dermo-corticoïdes au cours des différentes rechutes et dernièrement par photothérapie (UVA). Lors de l'examen, une simple surveillance clinico-biologique a été mise en place. Par ailleurs, la patiente ne présentait aucune autre pathologie ou traitement en cours. Lors de l'entretien médical, elle signalait n'avoir aucun antécédent d'exostose connu dans sa famille. Elle nous avait informés avoir été diagnostiquée pour ses exostoses buccales il y a 15 ans environ sans qu'aucune prise en charge particulière n'ait été effectuée. De plus, la patiente avait souligné son souhait d'intervention eu égard au volume qu'avaient pris ces excroissances ainsi qu'à la gêne fonctionnelle et esthétique qu'elles entraînaient.

L'examen clinique lors de la consultation initiale avait mis en évidence des exostoses bilatérales maxillaires vestibulaires et palatines postérieures, ainsi que mandibulaires vestibulaires et linguales, notamment en regard du foramen mentonnier. Elles étaient de différente taille, en forme de nodules comme le montre l'examen tomodensitométrique prescrit antérieurement par le service ORL (Fig. 1). De plus, la patiente présentait des attritions occlusales et des abfractions cervicales liées à un bruxisme actif non traité depuis plus de 15 ans. Cependant la prise en charge de son bruxisme avait été initiée par la réalisation d'une butée antérieure, mais elle n'avait pas été tolérée par la patiente, qui n'avait pas reconsulté. Ces usures avaient entraîné une baisse de la dimension verticale d'occlusion et de l'étage inférieur de la face, une augmentation du surplomb et une bascule compensatrice de la mandibule en haut et en avant. De ce fait, un claquement au niveau de l'ATM gauche et une ouverture asymétrique avaient été constatés ; cette dernière étant la traduction d'une luxation méniscale réductible, apparue depuis une année selon la patiente.

Initialement, une première intervention avait été réalisée afin d'éliminer les exostoses vestibulaires mandibulaires. Une prescription préopératoire anti-inflammatoire (prednisolone 1 mg/kg jour en une prise unique le matin de l'intervention puis les deux matinées suivantes), antalgique (paracétamol 500 mg, codéine 30 mg toutes les 6 heures pendant 48 heures puis du paracétamol 1 g toutes les 6 heures pendant 2 jours), antiseptique (bain de bouche à base de chlorhexidine 0,12 % pendant sept jours) ainsi qu'une antibioprophylaxie (amoxicilline 2 g une heure avant l'intervention) avaient été délivrées. Des incisions intrasulculaires par héli-arcade étaient réalisées et un lambeau de pleine épaisseur levé (Fig. 2). L'ostéectomie et la régularisation avaient été réalisées sous irrigation. Après avoir rincé le site avec un

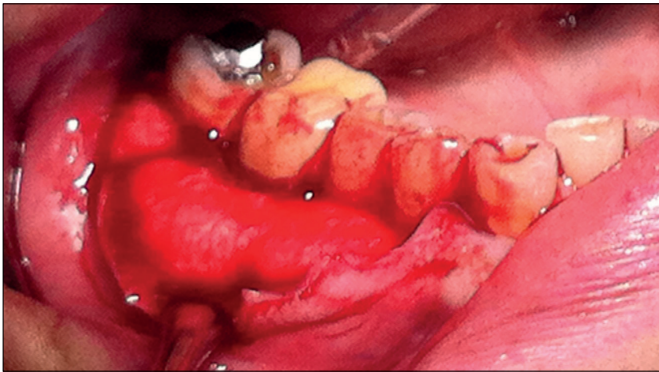


Fig. 2. Exostoses mandibulaires vestibulaires droites pendant l'exérèse.
Fig. 2. Right vestibular mandibular exostoses during surgical procedure.



Fig. 4. Aspect clinique de la cicatrisation gingivale à un mois.
Fig. 4. Clinical appearance of gingival wound healing after one month.



Fig. 3. Aspect clinique suite à l'exérèse des exostoses vestibulaires mandibulaires.
Fig. 3. Clinical appearance after respective surgery of the vestibular mandibular exostoses.

agent antiseptique, les berges des lambeaux étaient suturées (Fig. 3).

L'examen anatomopathologique des fragments osseux avait conclu à la présence d'os compact de morphologie normale, confirmant le diagnostic d'exostoses.

La patiente avait été revue à une semaine puis à un mois, afin de surveiller la cicatrisation postopératoire (Fig. 4) et de concevoir une plaque de libération occlusale. À terme, une restauration prothétique esthétique et fonctionnelle était envisagée.

Revue de littérature

Afin d'appréhender au mieux la prise en charge du cas rapporté, une analyse de la littérature a été effectuée sur différents moteurs de recherche en utilisant les mots clés torus palatin, torus mandibulaire, exostoses.

Épidémiologie

Chez des populations de différentes origines ethniques, le torus palatin (TP) varie de 0 à 66 % et le torus mandibulaire (TM) de 0 à 85,7 %. Le TP est le plus souvent rencontré chez les femmes [1-6] entre la 3^e et la 4^e décade [1]. Aux États-Unis, il est plus fréquemment rapporté chez les Caucasiens par rapport aux Afro-Américains [1].

A contrario, le TM semble plus fréquent chez l'homme [1-6] et retrouvé à la 4^e décade bien que cela ne soit pas toujours confirmé par les différentes études. Il est majoritairement présent chez les Inuits, touchant 61 % de la population [7] et apparaît plus fréquent chez les Afro-Américains que chez les Caucasiens aux États-Unis [1]. Sa taille évolue avec l'âge et le nombre de dents. En effet, il est noté une diminution des TM à partir de 50 ans, associée à la perte dentaire [1].

Les exostoses sont plus fréquentes chez les hommes, de 35 à 65 ans [3].

Diagnostic clinique et paraclinique

Examen intraoral

Le TP est situé le long de la crête longitudinale du palais dur et peut être plat, nodulaire, fusiforme ou lobulaire. La forme plate est la plus commune avec une distribution symétrique et un aspect lisse. Le torus nodulaire est le moins commun et constitué de multiples proéminences. L'allure fusiforme a un aspect de crête divisée par le raphé médian formant un sillon de taille limitée ou avec une extension en postérieur du palais dur. La forme lobulaire est la plus grande, elle est composée d'une large base associant de multiples sillons horizontaux et verticaux. Il est remarqué communément par les patients et les praticiens au moment de la troisième décade [1].

Le TM est situé sur la face linguale de la mandibule au-dessus de la ligne mylo-hyoïdienne, dans la région canine prémolaire de manière bilatérale (80 % des cas) ou unilatérale. Il est remarqué par les patients vers la 4^e décennie et régresse avec la perte des dents. En effet, les mécanorécepteurs situés au niveau des organes dentaires entretiennent les tori [1].

Les exostoses sont souvent multiples, bilatérales et situées au maxillaire. Les exostoses palatines représentent 8,1 à 56 % des exostoses orales et les exostoses mandibulaires 0,09 à 23,2 % [5]. Ces excroissances forment des petits nodules. Le plus souvent situées au niveau des prémolaires maxillaires, elles peuvent également avoir de nombreuses localisations. De par leur petite taille, elles sont le plus souvent découvertes post mortem [1].

Dans tous les cas, une attrition dentaire sera recherchée [2], ainsi que des antécédents de bruxisme et de dysfonctions de l'articulation temporo-mandibulaire.

Examens complémentaires

Radiographiquement, sont observées des masses radio-opaques bien délimitées [8]. Histologiquement, ces excroissances sont composées d'une corticale mature et d'un os trabéculaire ayant une activité ostéoblastique minimale. La muqueuse le recouvrant est fine et moins vascularisée [9], ce qui induit une sensibilité lors de traumatismes provoquant souvent des ulcérations ou des inflammations [1].

Diagnostic différentiel

Le diagnostic différentiel comprend les ostéomes qui sont des tumeurs bénignes formées de tissu osseux apparaissant comme des masses polypoïdes ou sessiles souvent asymptomatiques, généralement solitaires ou multiples comme dans le syndrome de Gardner [10, 11]. Les tori et les exostoses sont également à différencier des tumeurs malignes primitives comme l'ostéosarcome [1] et le chondrosarcome [11], des localisations tumorales secondaires ou encore de l'hématome sous-périoste ossifié [1].

Conséquences de la présence de tori et/ou exostoses

Le plus souvent, ils sont asymptomatiques et n'entraînent pas de gêne. Cependant, selon leur localisation et leur taille, ils peuvent amener des dysfonctions telles qu'une dysphagie lors de la mastication ou une dysphonie [1, 2]. Par ailleurs, ils peuvent créer des poches rétentrices d'aliments qui vont compliquer le maintien de l'hygiène buccale [1, 2] et entraîner des halitoses [12]. La muqueuse qui les recouvre étant plus fine et hypovascularisée est de ce fait plus sensible aux traumatismes. Ainsi, sont retrouvées des abrasions et des ulcérations [1, 2] qui peuvent amener un surrisque d'ostéonécrose

chez les patients ayant eu une radiothérapie cervico-faciale ou chez les patients traités par bisphosphonates [9, 13, 14]. La présence de tori peut également être une entrave à la réalisation d'une prothèse amovible ou d'une élévation coronaire [2], et gêner lors de l'intubation [15]. Ces excroissances ont également été mises en cause lors d'apnée du sommeil, du fait qu'elles limitent l'espace lingual [15]. Chez l'enfant, leur présence peut interférer avec les éruptions dentaires et les fonctions orales, pouvant avoir des conséquences sur la croissance faciale [16]. Leur présence peut tout de même s'avérer bénéfique, notamment en implantologie, puisqu'elles constituent un site donneur d'os autogène dans le cadre de greffes [1, 2].

Prise en charge des patients

La plupart des patients n'ont pas conscience d'avoir des tori et/ou des exostoses [1], celles-ci sont asymptomatiques. Il suffit alors simplement de surveiller leur évolution. Il faut alors rassurer le patient quant au caractère bénin de ces lésions [1].

En revanche, une résection chirurgicale peut s'avérer nécessaire dans le cadre d'une réhabilitation prothétique ou si une gêne fonctionnelle ou esthétique survient [1, 2, 10, 17]. Elle aura lieu sous anesthésie locale ou générale en une ou deux étapes selon la taille de l'excroissance et sa localisation [3]. Au niveau du TP, une incision médiane de la muqueuse palatine sera réalisée ainsi que deux incisions de décharges en V ouvert vers l'avant en antérieur et vers l'arrière en postérieur. On peut alors lever deux lambeaux latéraux mucopériostés de pleine épaisseur. L'ostéotomie de toutes les parties osseuses en excès se fera avec une fraise fissure ou un insert monté sur un piezotome [18], sous spray refroidissant avec une solution saline [18]. Au niveau des TM et des exostoses, les incisions seront intrasulculaires et de grande étendue pour donner de la laxité au lambeau [18]. Dans tous les cas, il faudra être vigilant quant à la proximité des obstacles anatomiques que sont le foramen mentonnier et le trajet du nerf mentonnier à la mandibule ainsi que le foramen palatin et le trajet de l'artère grand palatine au maxillaire [1]. Il est conseillé de réaliser une analyse anatomopathologique d'un fragment de l'os réséqué [18]. Une prothèse provisoire peut ensuite être directement posée pour maintenir le lambeau et limiter la formation d'un hématome [1, 3]. Suite à la chirurgie, il faudra surveiller l'évolution car de nombreuses récidives sont rapportées.

Étiologies

Les trois quarts des patients présentant des exostoses ont également un ou plusieurs TP ou TM [5]. La corrélation entre la présence de tori mandibulaires et d'exostoses interroge sur une étiologie commune [1]. De plus, comme pour les TM, les

exostoses sont dépendantes de la présence ou non de la denture, ce qui n'est pas le cas des TP [1]. On constate également une association entre le torus palatin et le torus mandibulaire : 50 % des patients ayant un ou des TM ont aussi un TP et 30 % des patients ayant un TP ont aussi un TM [2].

Le TP aurait un caractère héréditaire avec un mode de transmission autosomique dominant d'expressivité variable ayant une pénétrance de 85 % [1]. Il a été rapporté la possibilité qu'il existe un allèle sur le chromosome X qui pourrait être normal ou prédisposant au TP [19], ce qui expliquerait la fréquence féminine de cette pathologie, et le fait que chez l'homme le torus palatin peut être associé à un torus mandibulaire de manière inconstante, selon l'allèle que porte son chromosome X. Pour le TM, la part imputée à la génétique est de l'ordre de 30 %. Ainsi, les patients atteints du syndrome de Turner (45X) ont plus précocement des tori mandibulaires suggérant l'hypothèse qu'il existerait une régulation des TM par le chromosome Y, alors absent [1]. Les exostoses semblent avoir une part d'origine génétique lorsqu'elles sont multiples [1].

Les tori et les exostoses auraient également une origine traumatique. Leur apparition serait une réponse à un stress fonctionnel induit au niveau de l'os, notamment au niveau de l'os palatin pour les TP [1]. Ces traumatismes apparaîtraient lors de la mastication [1], par la consommation d'aliments durs [15], expliquant la prévalence de torus chez les Inuits qui consomment des viandes dures, sèches et crues [1]. Les para-fonctions telles que le bruxisme [1], les surcharges occlusales et prothétiques [15] engendreraient également des stress ou surpressions osseuses favorisant le remodelage osseux avec apposition. Une corrélation peut alors parfois être trouvée entre des patients anxieux présentant des pathologies de l'articulation temporo-mandibulaire, un bruxisme et la présence de tori [15]. Une des théories mises en avant pour expliquer la formation et la localisation des tori et des exostoses se base sur la présence de mécanorécepteurs au niveau du parodonte capables d'induire un signal de transduction aboutissant à la différenciation de cellules souches en ostéoblastes, aux épices des forces reçues [20]. Ainsi, lors du bruxisme, des forces périodiques, lourdes et de faible durée activeraient les mécanorécepteurs par la torsion des fibres de collagène et de l'os alvéolaire induisant un dépôt osseux à des endroits très spécifiques de pression pour maintenir l'équilibre homéostatique osseux [20]. Le palais est constitué telle une voûte, ainsi les forces se concentrent au niveau de la suture médiane expliquant la formation de TP. Cependant, si le vecteur des forces n'est plus centré sur la suture, des exostoses maxillaires peuvent apparaître. Au niveau de la mandibule, la présence du foramen mentonnier crée une zone de faiblesse qui subit donc préférentiellement les forces. Les TM et les exostoses dans le cas rapporté sont justement situés à ce niveau. Il est également évoqué que l'origine du bruxisme serait un mécanisme de défense contre le collapsus des voies

aériennes : ainsi les muscles masticateurs seraient à tort contractés de manière antagoniste au muscle constricteur supérieur ou inférieur du pharynx [20].

D'autres étiologies sont évoquées. Une consommation importante de poisson d'eau de mer avec un taux élevé d'acides gras polyinsaturés et de vitamine D pourrait être impliquée dans le développement osseux [9], ainsi qu'un régime alimentaire riche en calcium [1]. Une relation a été trouvée entre l'hypothyroïdisme et la présence de TP, en lien avec le fait que l'hypothyroïdie agit sur le turn-over osseux et inhibe sa résorption [2]. L'ostéoporose traitée par bisphosphonates est mise en cause, puisque les bisphosphonates augmentent la densité osseuse, il est alors possible qu'à long terme leur utilisation promeuve la formation des tori oraux et l'entretien [9]. Les traitements antihypertenseurs agissent sur le catabolisme osseux [2]. De ce fait, ils augmentent la densité et la formation osseuse. On note donc une association entre la présence d'un traitement hypertenseur et de tori oraux. D'autres hypothèses ont été émises, sans preuve statistique actuellement, notamment concernant l'association entre la présence de tori oraux et une altération de la fonction immune ou une allergie à la pénicilline [2].

L'analyse de la littérature a permis de balayer les différentes étiologies des tori et exostoses. L'hypothèse étiologique du cas rapporté a été en faveur d'un bruxisme important non traité.

Après motivation de cette patiente et l'explication de l'étiologie probable de ces exostoses, une plaque de libération occlusale de port nocturne a été confectionnée pour, d'une part, prendre en charge son bruxisme et, d'autre part, limiter le risque de récurrence des exostoses.

Conflits d'intérêt : aucun.

Références

1. Loukas M, Hulsberg P, Tubbs RS, Kapos T, Wartmann CT, Shaffer K, et al. The tori of the mouth and ear: A review. *Clin Anat* 2013;26:953-60.
2. Morrison MD, Tamimi F. Oral tori are associated with local mechanical and systemic factors: a case-control study. *J Oral Maxillofac Surg* 2013;71:14-22.
3. Raldi FV, Nascimento RD, Sá-Lima JR, Tsuda CA, Moraes MB. Excision of an atypical case of palatal bone exostosis: a case report. *J Oral Sci* 2008;50:229-31.
4. Romanos GE, Sarmiento HL, Yunker M, Malmstrom H. Prevalence of torus mandibularis in Rochester, New York, region. *NY State Dent J* 2013;79:25-7.
5. Sawair FA, Shayyab MH, Al-Rababah MA, Saku T. Prevalence and clinical characteristics of tori and jaw exostoses in a teaching hospital in Jordan. *Saudi Med J* 2009;30:1557-62.
6. Tamba B, Dia-Tine S, Gassama Barry BC, Kounta A, Niang PD, Ba A, et al. Exostoses buccales : revue de la littérature. *Med Buc Chir Buc* 2012;18:129-41.

7. Department of Anesthesiology, Albany Medical Center, Albany, New York. Beware the horns of the mandible! Anesthesiology 2013;118:710.
8. Bansal M, Rastogi S, Sharma A. Multiple mandibular exostoses: a rare case report. J Clin Diagn Res 2013;7:1802-3.
9. Goldman ML, Denduluri N, Berman AW, Sausville R, Guadagnini JP, Kleiner DE, et al. A novel case of bisphosphonate-related osteonecrosis of the torus palatinus in a patient with metastatic breast cancer. Oncology 2006;71:306-8.
10. Ayat A, Layaida K, Saari B, Boudaoud Z. Syndrome de Gardner diagnostiqué à partir de manifestations dento-maxillaires. Med Buc Chir Buc 2013;19:195-200.
11. Costa AG, Costa RO, Oliveira LR, Grossmann SM. Multiple oral radiopaque masses leading to Gardner's syndrome diagnosis. Gen Dent 2013;61:12-4.
12. Bennett WM. Torus palatinus. N Engl J Med 2013;368:1434.
13. Gunepin M, Derache F, De Jaureguibery JP, Bladé JS, 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.
14. 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 2008;14:5-18.
15. Al Quran FA, Al-Dwairi ZN. Torus palatinus and torus mandibularis in edentulous patients. J Contemp Dent Pract 2006;7:112-9.
16. Borzabadi-Farahani A, Yen SL, Yamashita DD, Sanchez-Lara PA. Bilateral maxillary duplication: case report and literature review. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2012;113:29-32.
17. Arcuri P, Campos L. Torus mandibularis. N Engl J Med 2013;368:11.
18. Perrin D, Ahossi V, Larras P, Lafon A, Gérard E. Manuel de chirurgie orale : Technique de réalisation pratique, maîtrise et exercice raisonné au quotidien. Éditions CdP, Malakoff, 2012.
19. Eggen S, Natvig B. Concurrence of torus mandibularis and torus palatines. Scand J Dent Res 1994;102:60-3.
20. Singh GD. On the etiology and significance of palatal and mandibular tori. Cranio 2010;28:213-5.