

Cas clinique et revue de la littérature

La chondromatose synoviale temporo-mandibulaire : à propos de 4 cas cliniques et revue de la littérature

Mónica Umana^{1,*}, Thierry Piral², Guy Princ², Boris Pételle³

¹ Service de stomatologie, hôpital Avicenne, Bobigny, France

² Service de stomatologie et chirurgie maxillo-faciale, hôpital Saint-Joseph, Paris, France

³ Service ORL, chirurgie cervico-faciale, hôpital Saint-Antoine, Paris, France

(Reçu le 7 juin 2015, accepté le 7 juillet 2015)

Mots clés :
articulation temporo-
mandibulaire /
chondromatose
synoviale /
ostéochondromatose
synoviale

Résumé – Introduction : L'ostéochondromatose ou chondromatose synoviale temporo-mandibulaire est une arthropathie chronique bénigne d'étiologie inconnue. Elle se caractérise par une métaplasie chondroïde de la membrane synoviale ayant pour résultat la formation intra-articulaire de corps cartilagineux ou ostéo-cartilagineux. **Observations :** Quatre cas d'ostéochondromatose synoviale de l'ATM sont envisagés : le premier exhibait un tableau clinique similaire à celui d'un désordre temporo-mandibulaire (DTM) ; quant aux trois autres, ils furent diagnostiqués à la suite d'une tuméfaction de la région prétragienne. **Discussion :** Cette pathologie se révèle par des signes articulaires similaires à ceux d'un DTM. Un bilan radiologique par tomodensitométrie ou par imagerie par résonance magnétique permet d'évoquer le diagnostic. Le traitement est l'ablation des corps étrangers. L'évolution est favorable avec un faible taux de récurrence. **Conclusion :** Les signes cliniques aspécifiques compliquent le diagnostic de cette pathologie. La confrontation des éléments cliniques, radiologiques et histologiques permet de poser le diagnostic.

Key words:
Temporomandibular
joint, synovial
chondromatosis,
synovial
osteochondromatosis

Abstract – Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: 4 case reports and literature review.
Introduction: Synovial osteochondromatosis or chondromatosis of the Temporomandibular Joint (TMJ) is a benign arthropathy of unknown etiology that is characterized by chondrometaplasia of the synovial membrane, resulting in multiple intra-articular cartilaginous bodies. **Observations:** We present four cases of this disorder: the first case presented signs and symptoms of TMJ disorder and the other three presented a preauricular swelling. **Discussion:** Patients usually present articular symptoms similar to those related to TMJ disorders. Imaging techniques such as computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) are used for the diagnosis. *Treatment of synovial chondromatosis* usually consists of removal of the intra-articular bodies. The recurrence rate is low. **Conclusion:** Aspecific articular symptoms complicate the diagnosis of this pathology. The diagnosis is made by assessing the clinical, radiological and histological findings.

Introduction

L'ostéochondromatose ou chondromatose synoviale de l'articulation temporo-mandibulaire (ATM) est une affection chronique bénigne d'étiologie inconnue. Elle se caractérise par une métaplasie chondroïde de la membrane synoviale ayant pour résultat la formation intra-articulaire de corps cartilagineux ou ostéo-cartilagineux [1, 2].

L'atteinte est habituellement mono-articulaire [3, 4] et concerne préférentiellement les grosses articulations, notamment le genou, la hanche et le coude [2]. En général, cette affection est plus courante chez l'adulte au cours des deuxièmes et troisièmes décennies de vie. Sa survenue au niveau de l'ATM est rare. Dans cette localisation, elle est plus fréquemment diagnostiquée chez la femme dans la quarantaine [3].

Quatre cas d'ostéochondromatose synoviale de l'ATM sont rapportés : le premier cas présentait un tableau clinique

* Correspondance : tomonicaumana@gmail.com

similaire à celui d'un désordre temporo-mandibulaire (DTM). En revanche, les autres cas ont été diagnostiqués à la suite d'une tuméfaction de la région prétragienne qui faisait suspecter une tumeur parotidienne.

Observations

La première patiente, âgée de 62 ans, venait en consultation après avoir vu plusieurs praticiens et avoir fait, sans succès, de la rééducation. Elle souffrait depuis plusieurs années de fortes douleurs de l'ATM droite, aggravées par la fonction articulaire, la mastication et l'élocution. À l'examen clinique, une limitation de l'amplitude des mouvements mandibulaires, de l'ouverture buccale ainsi que des bruits articulaires à type de crépitation étaient retrouvés. Par ailleurs, une tuméfaction prétragienne droite de consistance molle à la palpation a été observée. La patiente déclarait avoir souffert d'épisodes de blocage mandibulaire. La symptomatologie clinique, semblable à celle d'un DTM, expliquait le retard du diagnostic.

Un bilan radiologique complet était effectué. L'orthopantomogramme ne montrait pas d'anomalie des condyles qui étaient de morphologie normale centrés dans les cavités articulaires (Fig. 1).

L'examen tomодensitométrique mettait en évidence une arthrose de l'ATM droite associée à des corps étrangers intra-articulaires, en particulier à la face postérieure du condyle droit (Fig. 2).

L'imagerie par résonance magnétique montrait un aspect inflammatoire de l'ATM droite avec un très important épanchement articulaire et une condensation vraisemblablement réactionnelle de l'os temporal. La présence de petites images de tonalité calcique au sein de l'épanchement évoque le diagnostic d'ostéochondromatose (Fig. 3).

Le traitement chirurgical était réalisé par voie classique, avec une incision pré-auriculaire (Fig. 4). De multiples corps étrangers arrondis de couleur blanche ont été retrouvés au niveau du compartiment supérieur de l'ATM (Fig. 5). L'intervention a permis d'effectuer leur ablation minutieuse et de réaliser un lavage articulaire.

La deuxième patiente, âgée de 28 ans, consultait pour une asymétrie faciale et des épisodes de blocages articulaires douloureux. Initialement, une pathologie d'origine parotidienne avait été suspectée. Après l'interrogatoire, la patiente rapportait un antécédent de fracture de la branche montante mandibulaire droite survenu dix ans auparavant. À l'examen clinique, la palpation de la région de l'ATM était douloureuse, néanmoins, les mouvements articulaires étaient peu limités.

Un bilan radiologique complet avait donc été prescrit. L'examen tomодensitométrique retrouvait un épaississement discret de la corticale du processus condyalaire et de la partie haute du ramus droit avec une réaction périostée comme s'il s'agissait d'un aspect post-traumatique. En revanche, l'imagerie par résonance magnétique a permis de visualiser des zones



Fig. 1. La radiographie panoramique ne montre pas d'anomalie des condyles bien centrés dans les cavités articulaires.
Fig. 1. Panoramic radiograph does not show any abnormal condyle morphology, well positioned in the articular cavities.

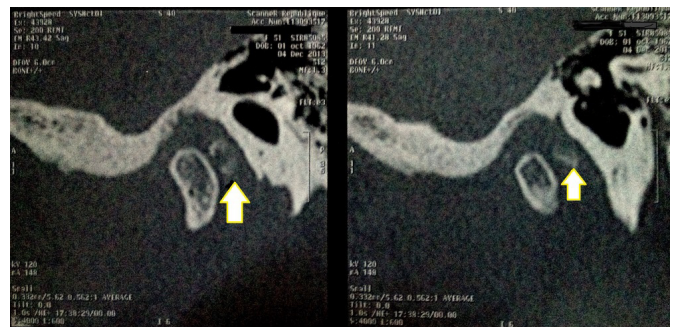


Fig. 2. L'examen tomодensitométrique montre des corps étrangers intra-articulaires, en particulier, à la face postérieure du condyle droit.
Fig. 2. CT-Scan shows loose bodies in the joint space at the posterior face of the right condyle.

hypo-intenses pouvant correspondre à des fragments cartilagineux (Fig. 6, 7 et 8). Lors de l'intervention chirurgicale, de multiples corps étrangers d'un blanc nacré ont été trouvés au niveau des compartiments supérieur et inférieur de l'ATM (Fig. 9).

La forme des particules était variable (Fig. 10) et leur taille allait de deux millimètres jusqu'à 1,5 cm (Fig. 11). Après ablation, un lavage articulaire était réalisé.

Le troisième patient, âgé de 35 ans, avait été adressé pour une tuméfaction de la région pré-auriculaire gauche évoluant par poussées, parfois douloureuses avec épisodes de limitation de l'ouverture buccale et de craquements de l'ATM. La symptomatologie aurait débuté 3 ans auparavant. Dans les antécédents, la patiente avait été victime d'un accident de la voie publique datant d'une dizaine d'années, mais sans fracture maxillo-faciale. À l'examen clinique, la tuméfaction prétragienne est dense, ferme, mobile par rapport au plan superficiel mais adhérente au plan profond. La dynamique mandibulaire est conservée. Une IRM révélait un important épanchement



Fig. 3. La présence de petites images de tonalité calcique évoque le diagnostic d'ostéochondromatose.

Fig. 3. The presence of calcified loose bodies within the joint space points to the diagnosis of osteochondromatosis.



Fig. 4. Voie d'abord pré-auriculaire.

Fig. 4. Preauricular surgical approach.

intra-articulaire collecté au niveau du compartiment supérieur ménisco-temporal et responsable d'un abaissement du ménisque (Fig. 12). Une arthrotomie temporo-mandibulaire est pratiquée, des fragments de tissu cartilagineux ont été retrouvés.

Le quatrième cas concernait une femme de 55 ans qui avait consulté pour une tuméfaction de la région prétragienne droite d'évolution progressive depuis plusieurs années. L'examen clinique avait mis en évidence une tuméfaction fluctuante à la palpation, non douloureuse. En l'absence de signes cliniques orientant le diagnostic vers un dysfonctionnement de l'ATM, une tumeur parotidienne était suspectée. Un bilan radiologique complet a été demandé et la présence des corps étrangers intra-articulaires était révélée.

L'intervention chirurgicale classique par voie pré-auriculaire a permis l'élimination de toutes les particules chondroïdes retrouvées au niveau des différents compartiments articulaires (Fig. 13).

Dans les quatre cas, l'examen histologique avait confirmé le diagnostic. Les corps étrangers retrouvés sont de nature cartilagineuse avec une absence de cellules atypiques, de mitose ou de nécrose, ainsi qu'une minéralisation sectorielle sans réelle métaplasie osseuse. Les plus petits de ces fragments présentaient des connexions étroites avec quelques lambeaux de synoviale.

L'analyse du liquide synovial avait été réalisée dans le but d'exclure la présence de cristaux d'urate monosodique (goutte), de pyrophosphate de calcium (chondrocalcinose), d'apatite, voire de corps amyloïdes.



Fig. 5. De multiples corps étrangers retrouvés au niveau du compartiment supérieur de l'ATM.

Fig. 5. Multiple intra-articular foreign bodies found in the TMJ's superior compartment.

Les suites opératoires avaient été simples pour tous les patients. Une nette amélioration des signes cliniques était notée dès la première consultation de contrôle, une semaine après l'intervention.

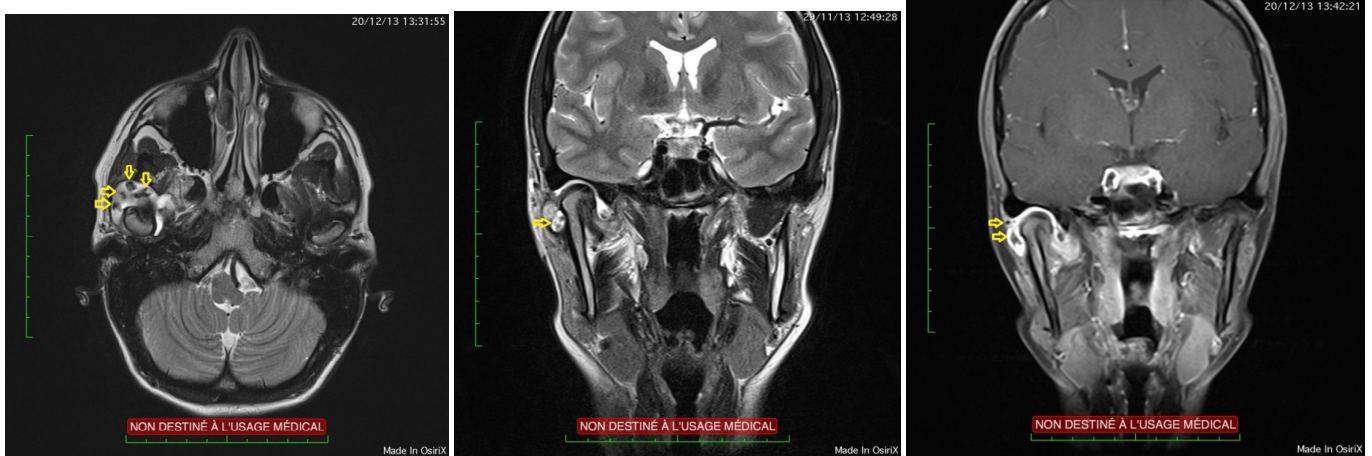


Fig. 6, 7 et 8. IRM : tuméfaction de l'articulation temporo-mandibulaire droite avec des zones évocatrices de fragments cartilagineux.
Fig. 6, 7 and 8. MR images clearly show cartilaginous intra-articular bodies.

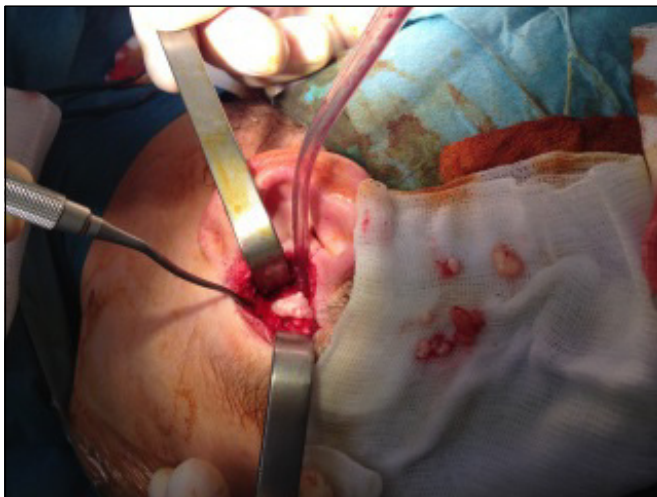


Fig. 9. Vue per-opératoire. Notez la voie d'accès pré-auriculaire.
Fig. 9. Surgical view. Notice the pre-auricular surgical approach.



Fig. 10 et 11. La forme et la taille des chondromes sont variables.
Fig. 10 and 11. Variable shapes and sizes of cartilaginous bodies.

Discussion

La chondromatose synoviale de l'ATM est une affection chronique peu fréquente qui a été décrite pour la première fois en 1933 par Axhausen [5].

Elle résulte d'une métaplasie bénigne du tissu mésenchymateux de la membrane synoviale qui entraîne la formation de corps cartilagineux arrondis ou chondromes.

Le mécanisme du processus métaplasique comprendrait une séquence primaire de différenciation des cellules synoviales de type B (fibroblasts like) de la couche subintimale en chondrocytes capables de sécréter une substance chondromatrice : la chondromucine. Une fois les « nidus » cartilagineux

constitués, ceux-ci vont croître par la prolifération et l'activité propre des chondrocytes, pour s'organiser en nodules [6, 7].

Ces derniers siègent dans la face interne de la synoviale, puis se pédiculisent et enfin se détachent et se libèrent progressivement dans l'articulation [8]. Le nombre de corps étrangers est variable et peut atteindre plusieurs centaines. Lorsque ces chondromes s'ossifient secondairement, on les appelle ostéochondromes.

On décrit trois phases évolutives dans la chondromatose synoviale de l'ATM [9, 10, 11] :

- une première phase de métaplasie synoviale active avec des foyers cartilagineux intrasynoviaux sans corps détachés ;
- une deuxième phase de métaplasie synoviale avec des corps pédiculés et détachés de manière concomitante. Il s'agit des corps chondroïdes, constitués d'amas de chondrocytes actifs entourés d'une matrice acellulaire de cartilage hyalin. Parfois, ils sont entourés par la membrane synoviale ;
- et une troisième phase de métaplasie synoviale inactive avec des corps complètement détachés flottant dans le liquide synovial.

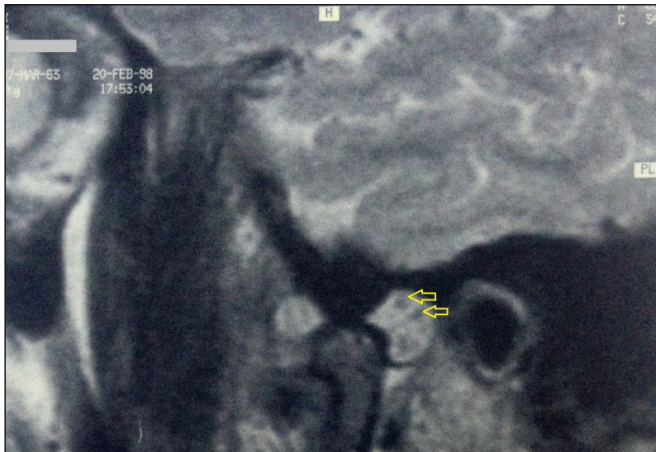


Fig. 12. IRM de l'articulation temporo-mandibulaire gauche : épanchement intra-articulaire collecté au niveau du compartiment supérieur.
Fig. 12. MR imaging: joint effusion in the superior compartment of the left TMJ.



Fig. 13. Vue per-opératoire montrant des corps étrangers de forme arrondie.
Fig. 13. Surgical view: presence of foreign bodies exhibiting a rounded morphology.

- L'étiopathogénie de la chondromatose synoviale reste incertaine. L'hypothèse d'une pathologie synoviale primitive par métaplasie des fibrocytes synoviaux est avancée, ainsi que celle d'une affection secondaire liée à un traumatisme ou à une pathologie inflammatoire arthrosique [8]. Elle atteint principalement et par ordre décroissant : les articulations des genoux, la hanche, l'épaule, les coudes et la cheville, et plus rarement l'ATM, main et poignet. Cette pathologie est quatre fois plus fréquente chez les femmes que chez

les hommes [12]. Les sujets touchés ont un âge moyen de 44 ans [1]. Les formes bilatérales sont rares [13].

Habituellement, des signes articulaires sont retrouvés : des douleurs, des bruits (claquement, craquement), [14] ainsi qu'une déviation et une limitation de l'ouverture buccale et parfois des phénomènes de blocage [15] avec une tuméfaction pré-auriculaire [16] peuvent être associés. Ces signes cliniques aspécifiques et leur évolution lente expliquent le retard dans le diagnostic estimé à 3,5 ans [17].

Le diagnostic est complexe, surtout au stade initial, prêtant à confusion avec une tumeur parotidienne ou des dysfonctions articulaires [11]. En outre, le diagnostic différentiel se pose également, pour toutes les affections pouvant libérer des fragments ostéocartilagineux dans l'ATM à savoir, entre autres, l'arthrose, les traumatismes, l'ostéochondrite disséquante, la nécrose aseptique épiphysaire et les arthropathies nerveuses [8].

Le bilan radiologique standard, l'orthopantomogramme, passe souvent à côté du diagnostic, il met parfois en évidence un élargissement de l'interligne articulaire, un remaniement des surfaces articulaires de l'ATM, des signes d'arthrose mais ne retrouve les corps cartilagineux que lorsqu'ils sont calcifiés.

L'imagerie de l'ATM fait appel actuellement, soit à l'examen tomодensitométrique, soit à l'examen par résonance magnétique [15, 18].

Ils permettent de visualiser les corps étrangers et un épanchement synovial [19], ainsi que de diagnostiquer une migration des ostéochondromes au niveau de la base du crâne et de la fosse infra-temporale. De multiples petites images arrondies, hypo-intenses à l'IRM, sont observées. Cependant, l'examen TDM les visualise mieux. L'étage articulaire supérieur disco-temporal est le plus atteint [20]. Des signes de dégénérescence osseuse sont souvent retrouvés (encoche osseuse temporale ou condylienne) [15]. Plusieurs auteurs ont rapporté l'utilité de l'arthroscopie dans le diagnostic par prélèvement et analyse histologique du tissu synovial [11].

Le diagnostic de certitude de chondromatose synoviale est histologique. Les corps étrangers sont constitués d'amas de chondrocytes actifs, groupés en bouquets et entourés d'une matrice acellulaire de cartilage hyalin. Ils sont toujours multiples (plusieurs dizaines voire centaines d'unités) et de forme sensiblement identique, ressemblant à des perles de petite taille (1 à 10 mm de diamètre) dont la couleur varie du jaune au blanc grisâtre [21, 22].

L'évolution de la chondromatose synoviale est lente et progressive [1, 23]. Sans traitement, elle aboutit à une hyperplasie capsulaire et à des altérations dégénératives des surfaces osseuses.

Le traitement doit être chirurgical pour permettre la découverte et l'ablation minutieuse de ces corps étrangers. Éventuellement, il peut être réalisé sous arthroscopie dans les stades précoces. Le taux de récurrence post-opératoire rapporté est de 15 % [24] avec un recul de 3 ans [17] et serait en rapport

avec une synovectomie incomplète [1]. Le cas échéant, une discectomie avec synovectomie peut être proposée [25]. La dégénérescence sarcomateuse a été exceptionnellement décrite dans 5 % des cas [24].

Cependant, des récurrences multiples se produisant à court intervalle doivent alerter le praticien sur la possibilité d'être face à un cas de chondrosarcome synovial [26].

Conclusion

L'ostéochondromatose synoviale de l'ATM est une affection chronique rare, d'étiologie encore incertaine et qui se traite chirurgicalement. Son diagnostic est complexe, notamment au stade initial car elle peut être confondue avec une tumeur parotidienne ou avec un désordre DTM. Le bilan radiologique complet des ATM (orthopantomogramme, tomodynamométrie et imagerie par résonance magnétique) oriente le diagnostic. Néanmoins, c'est la confrontation des éléments cliniques, radiologiques et histologiques qui permet un diagnostic de certitude.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

- Rousselin B, Godefroy D, Chagon S, Judet O, Qanadli SD, Mignon F, et al. Ostéochondromatose synoviale. EMC (Elsevier, Paris), Radiodiagnostic-Neuroradiologie-Appareil locomoteur 31-380-A-10, 1998, 7 p.
- Demirhan M, Eralp L, Atalar AC. Synovial chondromatosis of the subcoracoid bursa. *Int Orthop* 1999;23:358-360.
- Holmlund AB, Eriksson L, Reinholt FP. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: clinical, surgical and histological aspects. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2003;32:143-147.
- Caillens JP, Allie Y, Jarrousse Y, Roustan J, Waysenson A, Picard JJ. Chondromatose de l'épaule. *Rhumatologie* 1980;2:32:21-33.
- Axhausen G. Pathologie and therapie des Kaiefergelenkes. *Fortschr Zahnheilk* 1933;9:171-186.
- Ballard R, Weiland LH. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Cancer* 1972;30:791-795.
- Milgram JW. The classification of the loose bodies in human joints. *Clin Orthop* 1977;124:282-291.
- El Khatiba K, Duhamela P, Bracheta M, Fossata S, Lakhela A, Girauda O, et al. Ostéochondromatose synoviale temporo-mandibulaire : prise en charge de deux cas. *Médecine et Armées* 2012;41(3):285-288.
- Milgram JW. Synovial osteochondromatosis: a histopathological study of 30 cases. *J Bone Joint Surg Am* 1977;59:792-801.
- Milgram JW, Hadesman WM. Synovial osteochondromatosis in the subacromial bursa. *Clin Orthop Relat Res* 1988;236: 154-159.
- Benhalima H, Princ G. La chondromatose synoviale de l'articulation temporo-mandibulaire. *Act Odonto Stomatol* 2000;110:187-194.
- Fee WE Jr, Windhorst P, Wiggins R, Pang L. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1979; 87:741-748.
- Keogh CF, Torreggiani, Munk PL. Bilateral synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Clinical Radiol* 2002;57: 862.
- Balasundaram A, Geist JR, Gordon SC, Klasser GD. Radiographic diagnosis of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: a case report. *J Can Dent Assoc* 2009;75(10):711-714.
- Chassagne JF, Chassagne S, Deblock L, Gillet P, Kahn JP, Bussienne JE, et al. Pathologie non traumatique de l'articulation temporo-mandibulaire. *Encycl Méd Chir (Éditions Scientifiques et Médicales Elsevier SAS, Paris, tous droits réservés), Stomatologie, 22-056-R-10, Odontologie, 23-446-D-10, 2003, 46 p.*
- Phelan E, Griffin J, Timon C. Temporomandibular joint osteochondromatosis: an unusual cause of preauricular swelling. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2011;120(1):63-65.
- Nimeskern N, Gleizal A, Geha H, Béziat JL. Ostéochondromatose synoviale de l'articulation temporo-mandibulaire. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2006;107:483-485.
- Varol A, Sencimen M, Gulses A, Altug HA, Dumlu A, Kurt B. Diagnostic importance of MRI and CT scans for synovial osteochondromatosis of the temporomandibular joint. *Cranio* 2011;29(4):313-317.
- Mupparapu M. Synovial Chondromatosis of the temporomandibular joint with extension to the middle cranial fossa. *J Postgrad Med* 2005; 51:122-124.
- Guijarro-Martínez R, Pucho Torres M, Marqués Mateo M, Solís García I, Miragall Alba L, Iglesias Gimilio ME, et al. Bilateral synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *J Craniomaxillofac Surg* 2011;39(4):261-265.
- Symconides P. Bursal chondromatosis. *J Bone Joint Surg* 1966; 48:371-372.
- De Ferm A, Lagae K, Bunker T. Synovial osteochondromatosis: an unusual cause for subacromial impingement. *Acta Orthop Belg* 1997;63:218-20.
- Ko JY, Wang JW, Chen WJ, Yamamoto R. Synovial chondromatosis of the subacromial bursa with rotator cuff tearing. *J Shoulder Elbow Surg* 1995;4:312-16.
- Humphrey P, Dehner L, Pfeiffer J. *The Washington Manual of Surgical Pathology*. Lippincott Williams & Wilkins 2008;662.
- Lucas JH, Quinn P, Foote J, Baker S, Bruno J. Recurrent synovial chondromatosis treated with meniscectomy and synovectomy. *Oral Surg Med Oral Pathol Radiol Endod* 1997;84:253-58.
- Hamilton A, Davis RI, Hayes D, Mollan RAB. Chondrosarcoma developing in synovial chondromatosis. *J Bone Joint Surg Br* 1987;69:137-140.