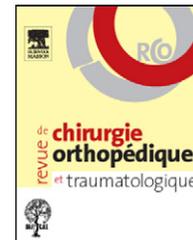




Disponible en ligne sur
 ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France
 EM|consulte
www.em-consulte.com



FAIT CLINIQUE

Récidive d'ostéochondrite primitive de hanche[☆]

Recurrent Legg-Perthes-Calve disease

J. Henner*, F. Chotel, V. Cunin, J. Bérard

Hôpital universitaire Femme–Mère-Enfant de Lyon, 59, boulevard Pinel, 69500 Bron, France

Acceptation définitive le : 22 février 2010

MOTS CLÉS

Ostéochondrite
primitive de hanche ;
Récidive ;
Enfant

Résumé La maladie de Legg-Perthes-Calvé ou ostéochondrite primitive de hanche est une pathologie fréquente dont la récurrence est, en revanche, extrêmement rare. Les auteurs rapportent le cas d'une fillette âgée de 4,5 ans au moment du diagnostic d'ostéochondrite primitive bilatérale. Un traitement en appareil d'Atlanta a été mis en place. Le suivi radiologique montrait une cicatrisation complète de la hanche droite à 1,5 an d'évolution (groupe 2 de Catterall). L'enfant fut revue à l'âge de huit ans pour boiterie et gêne fonctionnelle en rapport avec une récurrence de l'ostéochondrite de la hanche droite (groupe 3 de Catterall). L'évolution a été satisfaisante. L'enfant a été évaluée à maturité osseuse avec un bon résultat clinique et radiologique. Il est classique de considérer l'enfant atteint d'ostéochondrite comme « vacciné » pour cette pathologie. Cette notion est fautive et l'analyse de la littérature a permis de retrouver dix cas similaires. En tenant compte de notre cas, 11 enfants ont présenté une ostéochondrite récidivante (deux filles pour neuf garçons). L'âge moyen de début du premier épisode était de quatre ans (2,5–6 ans). Cinq enfants sur 11 présentaient au premier épisode une ostéochondrite bilatérale. La récurrence survient à l'âge moyen de 9,4 ans (six à 12 ans) et s'est faite sur un mode plus sévère que le premier épisode. Le pronostic final après ostéochondrite récidivante ne serait pas moins bon qu'après atteinte classique. Ce cas exceptionnel de récurrence d'ostéochondrite de hanche est bien documenté jusqu'à maturité osseuse. Il ne plaide pas en faveur de l'hypothèse d'une maladie de Meyer lors de l'épisode initial avancé par certains auteurs, mais plutôt de récurrence d'une authentique ostéochondrite primitive de hanche.

© 2010 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

Introduction

La maladie de Legg-Perthes-Calvé ou ostéochondrite primitive de hanche est une pathologie fréquente responsable de boiterie de l'enfant entre trois et neuf ans. Il est classique de considérer que la hanche victime d'une ostéochondrite est à l'abri de la récurrence, comme « immunisée » face à cette pathologie. Seuls quelques cas de récurrence d'ostéochondrite sont rapportés dans la littérature [1–9],

DOI de l'article original : [10.1016/j.otsr.2010.01.005](https://doi.org/10.1016/j.otsr.2010.01.005).

[☆] Ne pas utiliser, pour citation, la référence française de cet article, mais celle de l'article original paru dans *Orthopaedics & Traumatology: Surgery & Research*, en utilisant le DOI ci-dessus.

* Auteur correspondant. Service d'orthopédie, hôpital d'Albertville, BP 126, 73208 Albertville cedex, France.

Adresse e-mail : a.pinaroli.j.henner@wanadoo.fr (J. Henner).

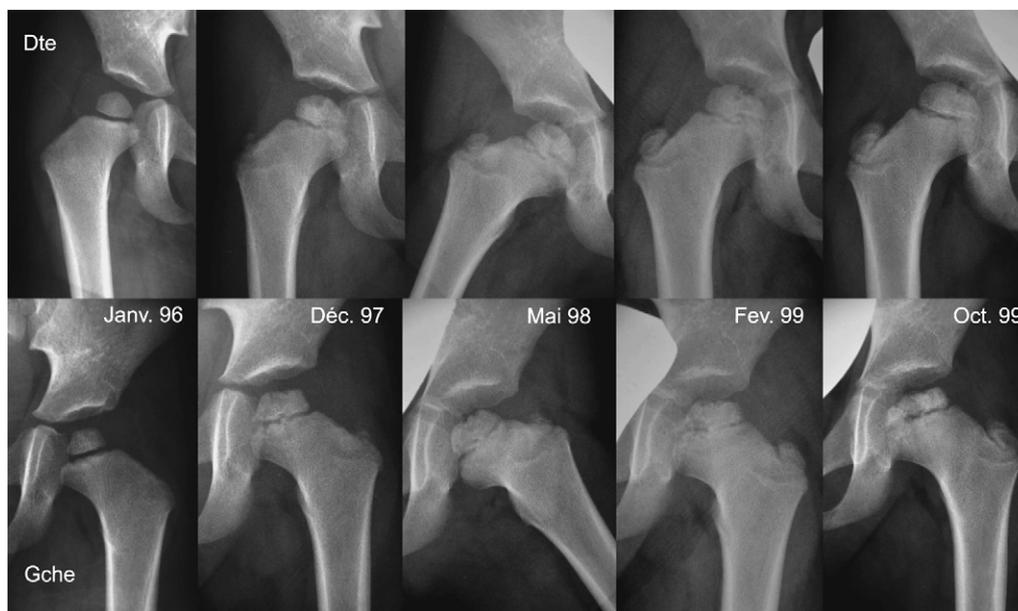


Figure 1 Différentes phases évolutives des ostéocondrites sur la radiographie de bassin de face. Les radiographies de hanche droite (sus-jacente) et gauche (sous-jacente) pour une même période sont superposées. L'épiphyse fémorale droite est reconstruite sur le cliché d'octobre 1999, alors que l'épiphyse fémorale gauche reste encore fragmentée.

toutefois la gravité et l'évolution à maturité osseuse sont rarement mentionnées.

En 40 ans d'expérience de l'orthopédie pédiatrique, un seul cas de récurrence d'ostéocondrite a été traité dans notre service. L'analyse de ce cas, combinée à une revue de la littérature, a pour but de mieux comprendre cette entité.

Cas rapporté

Anaïs était une fillette âgée de 4,5 ans, sans antécédent médicochirurgicaux, lorsque le diagnostic d'ostéocondrite primitive de hanche bilatérale fut porté en décembre 1997. Elle avait présenté auparavant deux épisodes consécutifs de boiterie avec douleurs des deux hanches. L'atteinte des deux hanches n'a pas été simultanée comme le montre un cliché radiographique plus ancien (janvier 1996) avec une atteinte inaugurale hanche gauche et une hanche droite normale à cette période. L'évolution radiologique de cette première période est représentée par la Fig. 1.

L'enfant fut adressée dans notre unité en mai 1998, pour prise en charge de son ostéocondrite bilatérale, elle était alors appareillée en attelle d'Atlanta depuis plus d'un an. La hanche droite était classée groupe 2 de Catterall [10] et de Herring et al. [11], la hanche gauche étant classée groupe 3 de Catterall [10] et de Herring et al. [11].

En juillet 1998, la patiente étant indolore avec de bonnes amplitudes articulaires de hanche (abduction 50°, adduction 30°, rotation interne 50° à droite et abduction 50°, adduction 30°, rotation interne 40° à gauche), il a été décidé d'arrêter le port de l'attelle d'Atlanta.

L'enfant fut revue en février 1999, elle était alors asymptomatique avec un examen clinique des deux hanches normalisé. La radiographie montrait une tête fémorale droite en phase de reconstruction (Fig. 1). Anaïs fut autorisée à reprendre une vie normale sans restriction sportive, puis confiée à son orthopédiste local pour le suivi ultérieur.

La radiographie d'octobre 1999 (Fig. 1e) retrouvait une épiphyse fémorale droite reconstruite.

La patiente fut à nouveau adressée par son pédiatre en septembre 2001 en raison de récurrence de douleurs de la hanche droite depuis quelques mois. L'évolution radiographique de cette seconde période est représentée par la Fig. 2. L'importance de la symptomatologie douloureuse avait conduit à une mise en décharge par cannes canadiennes. Les amplitudes articulaires de hanches étaient alors de 0-120-10-20-20-10 à droite et de 0-140-40-20-60-30 à gauche. La radiographie de hanche droite d'août 2001 montrait un aspect caractéristique en « coup d'ongle ».

Cependant, étant donné le caractère exceptionnel des récurrences d'ostéocondrite primitive, un bilan inflammatoire associé à une IRM et à une scintigraphie ont été réalisés : le bilan inflammatoire était normal, tandis que la scintigraphie (Fig. 3) et l'IRM (Fig. 4) confirmaient le diagnostic de récurrence d'ostéocondrite sur la hanche droite.

Les examens à la recherche d'une ostéocondrite secondaire se sont révélés normaux (le bilan biologique comportait une numération formule sanguine, CRP, dosage de protéine C, protéine S, antithrombine 3 et D-dimères). Les recherches de syndrome des antiphospholipides, de résistance à la protéine C activée, de mutation du facteur 5 de Leiden ou d'une mutation du gène de la prothrombine étaient toutes négatives.

Des radiographies des genoux avaient été réalisées lors du premier épisode afin d'éliminer une dysplasie polyépiphysaire : elles étaient normales. L'enfant fut traitée par traction nocturne et appareil de Thomas diurne. L'évolution clinique et radiologique a été classique, bien que plus sévère que le premier épisode. Il s'agissait d'un groupe 3 de Catterall [10] et de Herring et al. [11].

En mars 2002, les hanches étaient indolores et bien assouplies par la traction (mobilité de 0-120-30-20-30-20 à



Figure 2 Seconde période d'évolution radiologique des ostéochondrites. Du côté droit, l'image en coup d'ongle sur l'incidence de profil d'août 2001, signe la récurrence de l'ostéochondrite, alors que du côté gauche, l'épiphyse est pratiquement reconstruite à cette période.

droite et de 0-120-45-20-50-40 à gauche). La radiographie retrouvait une ostéochondrite droite de groupe 3 avec conservation du mur externe (Fig. 2). La traction nocturne a été arrêtée en juin 2002.

En mars 2003, l'appareil de Thomas a été arrêté et remplacé par des cannes canadiennes, avec sevrage progressif. L'examen clinique retrouvait une amyotrophie de cuisse droite de 10 mm, une antéverson symétrique de 10°, la hanche était souple. La radiographie montrait une épiphyse fémorale en phase de reconstruction. La reprise du sport a eu lieu en juin 2004.

L'évaluation en mai 2006 rapportait quelques douleurs occasionnelles après une pratique sportive prolongée. L'examen montrait des amplitudes articulaires des hanches symétriques et l'absence d'amyotrophie de cuisse. La radiographie objectivait un bon remodelage des têtes fémorales avec une coxa magna droite mais une bonne sphéricité.

Au dernier recul (mars 2009), la patiente était âgée de 15 ans et totalement asymptomatique. Les amplitudes arti-



Figure 4 IRM d'octobre 2001: « le comportement du signal de la tête fémorale droite associé à un épanchement intra-articulaire et à une inflammation est tout à fait compatible avec une lésion d'ostéochondrite de la tête fémorale droite ».

culaires étaient symétriques. La radiographie n'objectivait que de minimes séquelles radiologiques (Fig. 5).

Discussion

Ce dossier est suffisamment documenté pour pouvoir attester de la guérison clinique et radiologique du premier épisode. Par ailleurs, le bilan étiologique à la recherche

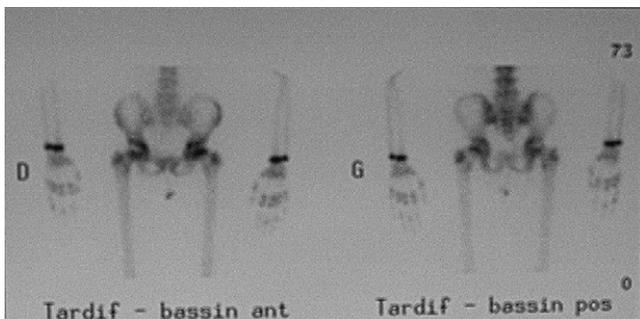


Figure 3 Scintigraphie d'octobre 2001: « hypofixation de la tête fémorale droite pouvant se rapporter à une ostéochondrite ».



Figure 5 Radiographie du bassin de face au dernier recul (13 ans après la première ostéochondrite), mars 2009.

d'ostéochondrite secondaire est resté négatif, ce qui permet de parler de récurrence d'ostéochondrite primitive.

Cette situation est exceptionnelle dans notre expérience, elle est unique en 40 ans de pratique en orthopédie pédiatrique; soit un cas sur environ 700 dossiers codés « ostéochondrite primitive de hanche » dans notre unité et un taux de 0,14% de récurrence. Pour Katz [2], la récurrence ne concernerait que 0,25% des ostéochondrites primitives.

L'analyse de la littérature permet de retrouver 12 autres cas de récurrence d'ostéochondrite primitive de hanche. Cependant, deux cas ne sont que mentionnés dans les articles (Kemp [1], Caffey [12]) et seulement dix cas sont exploitables (Tableau 1).

Les patients concernés par la récurrence d'ostéochondrite sont presque tous des garçons (neuf garçons sur 11) et ils sont très jeunes au moment de leur premier épisode (âge moyen : quatre ans). La proportion d'atteinte bilatérale de hanche au premier épisode est anormalement élevée chez ces 11 patients (45% contre 15 à 20% habituellement). La fréquente bilatéralité associée au jeune âge des patients pourrait faire évoquer une maladie de Meyer [13], forme particulière d'ostéochondrite bilatérale dans 40% des cas, touchant des enfants plus jeunes, en majorité des garçons, avec une durée d'évolution moins longue et un pronostic globalement meilleur que l'ostéochondrite primitive. L'aspect radiologique serait légèrement différent, avec des épiphyses de type « granuleux ». Bjerkreim et Hauge [3] intitulent leur article *so-called recurrent Perthes disease*; ils émettent l'hypothèse que les cas de récurrence d'ostéochondrite, y compris les deux leurs (pourtant unilatéraux initialement), sont des maladies de Meyer [13] suivies ultérieurement d'ostéochondrites vraies. Nous ne partageons pas cette analyse car dans notre cas, si l'atteinte de la hanche droite peut éventuellement prêter à discussion, l'atteinte de la hanche gauche a toutes les caractéristiques d'une forme sévère de la maladie décrite par Legg, Perthes, et Calvé. L'association chez un même patient d'une dysplasie

Tableau 1 Différents cas d'ostéochondrite primitive de hanche récidivante rapportés dans la littérature. Pour tous ces cas, la guérison radiologique du premier épisode a été affirmée.

Auteur/année	Sexe	Âge au 1 ^{er} épisode (ans)	Côté 1 ^{er} épisode	Groupe Catterall 1 ^{er} épisode	Âge à la récurrence	Côté récurrence	Groupe Catterall récurrence
Kemp et al., [1] 1971	M	4	D	1	7,5	D	2
Katz [2] 1973	M	5,5	D + G	NS	11	D	NS
Bjerkreim et Hauge, [3] 1976, cas n° 1	M	3	G	2	12	G	3
Bjerkreim et Hauge, [3] 1976, cas n° 2	M	2,5	D	2	8	D	3
Axer et Hendel [4] 1977	M	4	G	NS	8	G	NS
Burkhead et Wenger [5] 1981	M	6	D + G	2	10	G	3
Martinez et Weinstein [6] 1991	F	3	D + G	1	10	D	2 puis 4 ^a
Schonecker et al., [7] 1998	M	3	D	2	6	D	4
Stevens et al., [8] 2001	M	5,5	G	1	11	G	2
Ghanem et al., [9] 2005	M	2,5	D + G	2	11,5	G	3
Notre cas	F	4,5	D + G	2	8	D	3
Total/Moy.	9 M 2 F	4 ans	5 B + 6 U	1 ou 2	9,4 ans	6 D—5 G	2—3 ou 4

F : féminin ; M : masculin ; NS : non spécifié ; B : bilatéral ; U : unilatéral.

^a Changement de groupe de Catterall au cours de l'évolution du second épisode.

de Meyer [13] unilatérale d'un coté et d'une authentique ostéochondrite primitive de l'autre, nous paraît plus qu'improbable.

Pour tous les cas d'ostéochondrite bilatérale à l'exception de celui rapporté par Katz [2], le côté qui récidivait était celui dont l'évolution lors du premier épisode avait été la plus rapide et la plus bénigne. Toutes les atteintes bilatérales avaient été traitées par appareil d'Atlanta.

Dans tous les cas publiés ainsi que dans notre observation, la récidive était plus sévère que le premier épisode (Tableau 1). Il s'agit potentiellement d'un biais lié à l'âge plus élevé des enfants lors de la récidive. En effet, plus la maladie survient tard, plus le pronostic est mauvais (Ghanem et al. [9]).

Les publications d'ostéochondrite primitive récidivantes, rapportées dans la littérature, insistent le plus souvent sur le diagnostic et les circonstances de la récidive (Bjerkreim et Hauge [3], Axer et Hendel [4], Katz [2], Ghanem et al. [9]) mais donnent peu de données évolutives à maturité osseuse.

Le cas rapporté par Burkhead et Wenger [5] et celui de Schoenecker et al. [7] présentaient une évolution défavorable et ont nécessité une intervention chirurgicale. Le cas de Martinez et Weinstein [6] posait la question d'une chirurgie en raison d'une hanche raide avec une tête fémorale déformée au dernier recul. Enfin, le patient de Stevens et al. [8] présentait au dernier recul une hanche indolore, avec de très bonnes mobilités, mais 2,5 cm d'inégalité de longueur fémorale par col court et une coxa magna bien congruente.

Conclusion

La récidive d'ostéochondrite primitive de hanche est possible mais exceptionnelle (un cas sur 700 dans notre unité). Elle concerne pour l'essentiel les garçons qui ont présenté une ostéochondrite peu sévère et avant l'âge de six ans. La description et l'évolution du cas supplémentaire que nous rapportons, ne plaident pas en faveur de l'hypothèse d'une maladie de Meyer [13] au cours du premier épisode, avancée par certains auteurs.

L'évolution de la hanche ayant récidivé se fait habituellement sur une mode plus sévère que l'épisode initial, mais n'est pas forcément péjorative.

Conflit d'intérêt

Il n'y a aucun conflit d'intérêt pour aucun auteur pour cet article.

Références

- [1] Kemp HB, Cholmeley JA, Baijens JK. Recurrent Perthes' disease. *Br J Radiol* 1971;44:675–81.
- [2] Katz JF. Recurrent Legg-Calve-Perthes disease. *J Bone Joint Surg Am* 1973;55A:833–6.
- [3] Bjerkreim I, Hauge MF. So-called recurrent Perthes' disease. *Acta Orthop Scand* 1976;47:181–5.
- [4] Axer A, Hendel D. Recurrent Legg-Calve-Perthes' disease. A case report. *Clin Orthop* 1977;126:170–1.
- [5] Burkhead WZ, Wenger DR. Recurrent Legg-Calve-Perthes disease. *Iowa Orthop J* 1981;1:46–9.
- [6] Martinez AG, Weinstein SL. Recurrent Legg-Calve-Perthes disease: case report and review of the literature. *J Bone Joint Surg Am* 1991;73A:1081–5.
- [7] Schonecker G, Lampe R, Heimkes B. Recurrent Perthes disease in a 6-year-old boy. *Z Orthop Ihre Grenzgeg* 1998;136:26–9.
- [8] Stevens DB, Tao SS, Glueck CJ. Recurrent Legg-Calve-Perthes disease: case report and long term follow-up. *Clin Orthop* 2001;385:124–9.
- [9] Ghanem I, Khalife R, Haddad F, Kharrat K, Dagher F. Recurrent Legg-Calve-Perthes disease revisited: fake or reality? *J Pediatr Orthop B* 2005;14-6:422–5.
- [10] Catterall A. The natural history of Perthes disease. *J Bone Joint Surg Br* 1971, 53B:37-53.
- [11] Herring J, Kim H, Browne R. Legg-Calve-Perthes disease: part. Classification of radiographs with use of the modified lateral pillar and Stulberg classifications. *J Bone Joint Surg Am* 2004;86A:2103–20.
- [12] Caffey J. *Pediatric X-Ray diagnosis. A textbook for students and practitioners of pediatrics, surgery and radiology.* Chicago: Year Book Medical; 1961. pp. 968–73.
- [13] Meyer J. Dysplasia epiphysealis capitis femoris. *Acta Orthop Scand* 1964;34:183–97.