



Article Original

Manifestations Anatomiques et Fonctionnelles Bucco-Dentaires chez les Enfants Atteints de Trisomie 21

Anatomical and functional oral manifestations in children with Down Syndrome

Mbede Nga Mvondo Rose^{1,2,*}, Mbassi Awa Hubert Désiré^{1,3}, Zing Salomon^{1,4}, Ly-Leuk Amaria Bayik², Koupouapouognigni Njumemi Sodetou², Bengondo Messanga Charles^{1,5}

RÉSUMÉ

Introduction. La trisomie 21 présente un syndrome bucco facial chez plusieurs patients. Leurs multiples comorbidités générales, suscitent une négligence de suivi bucco-dentaire chez ces derniers. L'objectif de notre étude est donc de décrire les manifestations anatomiques et fonctionnelles buccales de ces patients. **Matériels et méthode.** Une étude transversale descriptive a été menée au Centre Mère et Enfant de la Fondation Chantal BIYA et à l'Hôpital Gynéco-Obstétrique et Pédiatrique de Yaoundé sur 40 cas d'enfants porteurs de trisomie 21. Cette étude s'est déroulée sur une durée de huit mois. Les informations ont été recueillies des dossiers médicaux, de l'interrogatoire des parents ou tuteurs et de l'examen anatomique et fonctionnel bucco-dentaire des patients. Le seuil de significativité considéré pour $p < 0,05$. **Résultats.** La classe III cutanéomuqueuse d'ANGLE et un diastème antérieur ressortaient, chez au moins 90% des 40 patients trisomiques 21 recensés. Anatomiquement, c'était des anomalies des tissus mous (langue plicaturée 62,5 %, macroglossie apparente 67,5 %) et des tissus durs, [palais ogival (80 %), 17,5 % de palais étroits, l'hypodontie 35 % ; l'hypoplasie de l'émail (20 %), la microdontie (55 %) ; des versions (32,5 %), infraclusion 80%]. Parmi les para-fonctions buccales, on notait des troubles de la phonation (97,5 %), une déglutition atypique (65 %), une ventilation mixte (82, %), le bruxisme (50 %) et une succion digitale (30 %). **Conclusion.** Les manifestations orales, anatomo-fonctionnelles de la trisomie 21 sont multiples. Elles nécessitent une prise en charge spécifique, prenant en considération leurs comorbidités.

ABSTRACT

Introduction: Trisomy 21 presents a bucco facial syndrome in several patients. Their multiple general comorbidities cause negligence of oral follow-up in these latter. The objective of our study is therefore to describe the oral anatomical and functional manifestations of these patients. **Materials and method:** a descriptive cross-sectional study was conducted at the Mother and Child Center of the Chantal BIYA Foundation and at the Gyneco-Obstetrics and Pediatric Hospital of Yaoundé on 40 cases of children with trisomy 21. This study took place over a period of eight months. Data were collected from patients' medical records, parents' or guardians' interview and anatomical and functional oral examination. The threshold significance level was $p < 0.05$. **Results:** Cutaneo-mucosal class III of ANGLE and an anterior diastema emerged in at least 90% of the 40 patients with trisomy 21 identified. Anatomically, these were soft tissue abnormalities (62.5% plicated tongue, apparent macroglossia 67.5%) and hard tissue abnormalities [ogival palate (80%), narrow palate 17.5%, hypodontia 35 %; enamel hypoplasia (20%), microdontia (55%); versions (32.5%), infraclusion 80%]. Among the oral para-functions, there were phonation disorders (97.5%), atypical swallowing (65%), mixed ventilation (82%), bruxism (50%) and digital sucking (30%). **Conclusion:** The oral, anatomo-functional manifestations of trisomy 21 are multiple. They require specific management, taking into consideration their comorbidities.

⁽¹⁾Faculté de médecine et des Sciences Biomédicales de l'Université de Yaoundé 1

⁽²⁾Info Maladie Rare

⁽³⁾Centre Mère et Enfant de la Fondation Chantal Biya

⁽⁴⁾Ecole Privée Supérieure de Médecine Dentaire

⁽⁵⁾Centre Hospitalier Universitaire de Yaoundé.

Auteur correspondant

Mbede Nga Mvondo Rose, Faculté de Médecine et des Sciences Biomédicales de l'Université de Yaoundé 1-Cameroun

Email : rose.mbede@yahoo.fr

Téléphone : 00237696802239.

Mots clés : manifestations anatomiques et fonctionnelles, bucco-dentaire, trisomie 21.

Keywords: anatomical and functional manifestations, oral, trisomy 21.

INTRODUCTION

La trisomie 21 ou syndrome de Down est une maladie génétique due à la présence d'un chromosome surnuméraire sur la 21ème paire de chromosome [1]. La prévalence dans le monde est de 100 cas pour 100 000 habitants [1] et concerne 9,2/10 000 naissances au Cameroun [2]. Les garçons sont autant touchés que les filles [1,2]. Les personnes porteuses d'une trisomie 21 présentent

généralement un syndrome bucco-facial propre à leur anomalie chromosomique. Des manifestations oro-dentaires sont fréquemment rencontrées chez ces patients. Ces troubles affectent la qualité de vie des personnes touchées et de leur entourage. La description des affections bucco-dentaires, dans notre contexte pourrait faciliter la prise en charge générale des troubles buccaux, anatomiques

et fonctionnels. C'est la raison pour laquelle nous avons entrepris de réaliser, un travail descriptif et transversal, avec pour objectif de décrire les manifestations anatomiques et fonctionnelles bucco-dentaires chez les personnes atteintes de trisomie 21. Pour y parvenir, nous avons, Dressé le profil socio-démographique et antécédents bucco-dentaires de notre population d'étude, décrit et déterminé la fréquence d'apparition de leurs signes anatomiques et fonctionnelles bucco-dentaires.

MATERIELS ET METHODES

Nous avons mené une étude transversale et descriptive au sein des services de pédiatrie de deux formations hospitalières de référence à Yaoundé: l'Hôpital Gynéco-Obstétrique et Pédiatrique de Yaoundé (HGOPY) et le Centre Mère et Enfant de la Fondation Chantal Biya (CME-FCB). L'étude a été réalisée sur une période de sept mois, de novembre 2020 à Juin 2021. Le choix de ces deux sites se justifiait par l'existence de consultations de neurologie pédiatrique (HGOPY et CME-FCB). Après consentement éclairé écrit des patients ou d'un membre familles. L'échantillonnage était non probabiliste et consécutif. Était inclus dans notre étude, tout sujet atteint de trisomie 21, inscrit dans les registres des formations hospitalières sus citées, se plaignant de symptômes buccaux ou non, et dont le parent ou tuteur avait donné son consentement éclairé pour la participation du patient à l'étude. Les patients décédés ou perdus de vue avaient été exclus de notre étude. Nous avons ensuite contacté les parents ou tuteurs des patients par téléphone pour un entretien téléphonique ou en présentiel, au cours duquel des informations sur tous les aspects de l'étude leur étaient données. Leurs consentements éclairés verbal et écrit étaient recueillis et c'est alors que nous avons enfin procédé au recrutement des patients. L'accord du patient était également requis, quand l'âge du patient et son état mental le permettaient. Par la suite un interrogatoire et un examen physique détaillé spécifiques étaient réalisés. Les données collectées comportaient: les informations socio-démographiques que sont l'âge, le sexe, le niveau d'instruction, le lieu de résidence et la région d'origine. Les antécédents familiaux de maladie identique, les antécédents personnels

d'affections bucco dentaires, de consultation de génétique ou de stomatologie. Puis nous procédions à une recherche de signes exo-buccaux et endo-buccaux. Les données recueillies pour chaque patient étaient marquées sur une fiche préalablement testée. Les participants, présentant des anomalies bucco-dentaires étaient orientés vers une consultation spécialisée. Les frais de déplacement des patients et de leurs parents ou tuteurs liés à notre étude, leurs étaient restitués. Ce travail avait obtenu la clairance éthique du Comité Institutionnel d'Ethique et de Recherche de la Faculté de Médecine et des Sciences Biomédicales de l'Université de Yaoundé-I et celle du Comité Institutionnel d'Ethique de la Recherche pour la Santé Humaine de l'Hôpital Gynéco-Obstétrique et Pédiatrique de Yaoundé. Pareillement, toutes les clairances administratives utiles avaient été obtenues. Les principes de confidentialité, l'innocuité, le respect de la dignité et de l'intégrité des patients de la déclaration d'Helsinki balisaient, toutes les étapes de cette étude. Les informations recueillies, ont été saisies à l'aide d'un masque de saisie conçu à l'aide du logiciel CPro 6.1. Elles ont été analysées grâce au logiciel SPSS version 25.0, les diagrammes, figures et tableaux ont été réalisés avec Microsoft Excel 2007. Le test de Chi carré nous a permis de faire la comparaison de proportions et des corrélations. Une valeur $p < 0,05$ était considérée comme significative.

RESULTATS

Sur les 40 patients trisomiques examinés au service de psychomotricité et kinésithérapie du Centre Mère et Enfant de la Fondation Chantal BIYA (CME-FCB) et au service de neuropédiatrie de l'Hôpital Gynéco-Obstétrique et Pédiatrique de Yaoundé (HGOPY), il y'avait 21 garçons et 19 filles. Les participants à l'étude vivaient pour la plupart en zone urbaine et les tranches d'âge les plus représentées étaient celles de 1-4 ans et 4-8 ans.

Parmi les anomalies sur les dents de lait, l'hypodontie et la microdontie ont été respectivement observées chez huit (20 %) et 17 (42,5 %) patients. Sept patients présentaient une hypoplasie amélaire et des dents coniques étaient retrouvées auprès de cinq d'entre eux soient 12,5 %. (Tableau I)

Tableau I : Anomalies anatomiques des dents temporaires et permanentes

Modalités	Variables	Dents temporaires	%	Dents permanentes	%
Anomalies de nombre	Absente/n'a pas fait son éruption	8	20	6	15
	Dent surnuméraire	4	10	5	12,5
Anomalie de structure	Hypoplasie de l'émail	7	17,5	1	2,5
Anomalie de taille	Microdontie	17	42,5	4	10
	Macrodontie	1	2,5	1	2,5
Anomalie de position	Version	10	25	2	7,5
Anomalie de forme	Normale	31	77,5	38	95
	Conique	5	12,5	1	2,5
	En pelle	1	2,5		
	En tournevis	3	5	1	2,5

En denture permanente, l'hypodontie était présente chez six patients et cinq avainet des dents surnuméraires, soient 12,5 % de notre population d'étude. La microdontie quant à elle, était observée chez quatre patients. (Tableau I)

La béance labiale était l'anomalie orthodontique la plus fréquente avec 37 sujets concernés. L'infra occlusion, le diastème antérieur (localisé au niveau des incisives centrales supérieures) et la supra occlusion, touchaient respectivement 32, 18 et 10 patients.

Parmi ces patients, 27,5 % avaient soit un frein labial court et étroit, soit un frein labial court et épais. Tandis que 33 patients T21 (82,5%) présentaient soit une langue plicaturée ou une macroglossie relative. (Tableau II).

Tableau II : Anomalies des tissus mous

Modalités	N	%
Frein labial supérieur et/ou inférieur	11	27,5
Frein court et étroit	4	10,0
Frein court et épais	7	7,5
Anomalie de la langue	33	82,5
Langue plicaturée	25	62,5
Macroglossie « relative »	27	67,5

Le tableau III montre Les troubles de fonctions trouvés dans notre population d'étude. A savoir : 26 cas présentant une déglutition atypique (65 %), une difficulté de phonation chez 39 patients (97,5 %), de ventilation mixte auprès de 33 trisomiques (82,5 %), succion digitale chez 12 trisomiques (30 %), 20 cas de bruxisme (50 %) et une hyposialie chez 17 patients (42,5%).

Tableau III : Anomalies buccales fonctionnelles

Modalités	Variables	N (%)
Déglutition	Primaire	14 (35)
	Atypique	26 (65)
	Difficile	39 (97,5)
Ventilation	Nasale	2 (5)
	Orale	5 (12,5)
	Mixte	33 (82,5)
Mastication	Unilatérale	15 (37,5)
	Alternée	22 (55)
	Autres	3 (7,5)
Succion	Digitale	12 (30)
	Tétine	2 (5)
Parafonction	Bruxisme	20 (50)
	Bavage	6 (15)
	Bruxisme et bavage	7 (17,5)
	Onychophagie	3 (7,5)
Salive	Hyposialie	17 (42,5)
	Asialie	8 (20)
	Hypersialie	12 (30)

DISCUSSION

Notre population d'étude avait un âge compris entre 14 mois et 15 ans. La tranche d'âge la plus représentée allait de 1 à 8 ans avec une fréquence de 70 %. Les patients de sexe masculin étaient majoritaires avec 52,5 % et les élèves de niveau maternel étaient les plus retrouvés avec 32,5%. Nos résultats sont semblables à ceux de Lamrani et al. en 2017 au Maroc, qui avait retrouvé une légère prédominance masculine de 57,32 % [1,2].

Tous nos patients avaient des dents présentes en bouche. Toutefois, on retrouvait un retard d'éruption dentaire dans 90 % des cas. Par ailleurs, seulement 25 % des participants affirmaient avoir consulté le médecin bucco-dentaire par le passé avec 7,5% qui effectuaient des visites de routine. 15% des patients avaient déjà subi une l'extraction dentaire. D'après une étude menée par Mbassi et col. En 2018, sur 242 patients souffrant de handicap, seuls 9,1% avaient déjà effectué une visite de routine chez l'odonto-stomatologue [3]. Une sensibilisation insuffisante serait associée à ce taux bas de bilan oro-dentaire recommandé.

Les dents présentaient des anomalies de nombre, de structure, de taille, de position et de forme.

A propos des anomalies de nombre, 50 % des patients de notre étude avaient au moins une anomalie de nombre. L'hypodontie était la plus rapportée avec 35 %, et des dents surnuméraires 15 %. D'après Acerbi et al en 2001 [4], l'hypodontie et la présence de dents surnuméraires chez les patients atteints de la trisomie 21 était de 60 % et 6 % respectivement. Pourtant, dans la population générale, on retrouve les dents surnuméraires dans 0,1 à 3,8% des cas. Les patients trisomiques seraient donc, plus exposés à ce trouble que la population générale [5].

S'agissant de l'anomalie de structure, l'hypoplasie de l'émail était la plus retrouvée dans notre échantillon avec 20 % de cas. En effet, l'émail comme le cerveau et le cœur, dérivent des interactions ecto-mésenchymateuses et serait tous en proie à un retard de maturation ou de différenciation terminale.

Concernant l'anomalie de taille, la microdontie et la macrodontie avec respectivement 55 % et 5 % étaient présentes en dentures temporaire et permanente. Nos résultats sont comparables à ceux de Dessai S.S. et al. [6] qui avaient trouvé 50 % de microdontie.

Des diastèmes inter-incisifs ont été observés chez 45,5 % de nos patients. D'après l'étude menée par Pohl et al [7] en 2019 en Alsace, 54,6% de patients avaient le diastème.

Dans notre population d'étude, la classe III d'Angle était majoritaire avec 90 % des cas. Cela serait dû à la protrusion mandibulaire liée à l'hypo développement des maxillaires. Aussi, l'infra occlusion avec 80 % des cas était fortement représentée chez nos patients. Selon les travaux de Pohl et al. en Alsace 2019[7] l'infra-occlusion était retrouvée chez 30 % de leurs patients T21. Cette fréquence plus élevée, chez nos patients trouverait son explication dans leur manque de suivi orthodontique et orthophonique.

Au sujet des parafonctions orofaciales, 82,5 % de nos patients avaient une ventilation mixte. L'hypoplasie de l'étage moyen de la face serait s'associerait à l'étroitesse des fosses nasales et des choanes [8]. D'où le renfort respiratoire buccal.

Le bruxisme a été observé chez 50 % des patients de nos travaux. Résultat semblable à celui de Ashworth et al. en 2013, qui parlaient de grincement dentaire dans la majorité des patients T21 de son étude [9].

Le flux salivaire était peu abondant dans notre population d'étude, avec 42,5 % d'hyposialie rapportée. Cette manifestation s'expliquerait par une hypotonicité musculaire au niveau de la langue et des lèvres avec posture buccale ouverte, donnant l'impression d'hypersialie [10]. 97,5 % de nos patients avaient une phonation difficile,

entraînant des défauts de prononciation de certains mots ; les difficultés les plus rapportées sont celles de la prononciation des consonnes « s » et « z ».

Une déglutition atypique ressortait chez 65 % de nos patients. Cette dernière serait associée à un palais étroit, une langue basse et en relative macroglossie. L'étude menée par Stanley et al. en 2018 [11] chez des enfants atteints de trisomie 21 prenait en compte le temps buccal et le temps pharyngien pour caractériser les troubles de l'alimentation et de la déglutition. Ces auteurs avaient rapporté que 55 % des enfants présentaient de cette dysfonction.

17,5% de nos patients avaient des freins courts et épais. Au niveau linguo-dentaire notre population d'étude présentait une langue plicaturée 62,5 % et 67,5 % de macroglossie relative. Ce volume linguo-dentaire serait lié à l'étroitesse de la voûte palatine (80 % des cas), empêchant le positionnement normal de la langue. Contrairement à nos travaux, ceux de Limbrock et al. [12], sur 400 enfants, évoquaient cinq cas de macroglossie « vraie ». Notre pourcentage serait plus élevé du fait de la distinction de caractérisation entre macroglossies « relative et vraie ».

CONCLUSION

Ce travail, permet de mettre en exergue les particularités anatomiques et fonctionnelles bucco-dentaires retrouvées chez des enfants atteints de trisomie 21. L'hypodontie, la macrodontie, la microdontie, la langue plicaturée et relativement en macroglossie sont les anomalies morphologiques, oro-dentaires les plus présentes. Les orofaciales quant à elles sont perturbées par, le bruxisme, la béance, la respiration et la sècheresse buccales. Les patients T21 et leur entourage, sensibilisés sur ces manifestations oro-faciales, doivent bénéficier d'une réhabilitation multidisciplinaire, spécifique et sur le long terme.

État des connaissances actuelles sur le sujet

- Des manifestations bucco-dentaires peuvent exister chez patients T21, et impacter négativement l'anatomie et les fonctions bucco-dentaires de ces derniers;
- Des soins spécifiques sont souvent nécessaires chez ces patients;
- La question est insuffisamment étudiée en Afrique.

Contribution de notre étude à la connaissance

- Évaluation pionnière du problème dans notre contexte;
- Cette étude nous apporte des éléments de plaidoyer pour l'amélioration objective de l'offre de soins à cette catégorie de patients souvent marginalisés.

Conflits d'intérêts

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts.

Contributions des auteurs

Tous les auteurs ont contribué à la réalisation de cette étude. Les auteurs déclarent également avoir lu et approuvé la version finale du manuscrit.

- Mbassi Awa Hubert Désiré (MAHD): a orienté les axes de recherche et relu tout ce travail jusqu'à la rédaction de l'article soumis pour publication.

- Zing salomon (ZS) : a orienté les axes de recherche et relu ce travail.
- Ly-Leuk Amaria Bayik (LLAB) : a participé à la collecte et l'analyse des données sur le terrain.
- Koupouapouognigni Njumemi Sodetou (KNS): a relu et participé à la traduction en langue anglaise de ce travail.
- Bengondo Messanga Charles (BMC) : a supervisé cette recherche scientifique du début à la fin, jusqu'à la soumission de cet article.

Remerciements

Aux Directeurs du Centre Mère et Enfant de la Fondation Chantal Biya et de l'hôpital Gynéco-obstétrique et Pédiatrique de Yaoundé. Merci d'avoir accepté que nous menions notre étude dans vos formations hospitalières dans les stricts respects de l'éthique et du secret médical. Notre gratitude, à la plateforme Info Maladie Rare pour son soutien tant scientifique que financier, dans les travaux liés aux maladies rares, orphelines, immuno- congénitales et complexes au Cameroun.

REFERENCES

1. Fofana.L, S.A.T Camara,Kourouma A . Prise en charge de la trisomie 21 chez l'enfant en odontologie. 2012.
2. Journée mondiale de la trisomie 21 : l'appel de 21 mères à RT. 2016.<https://t.co/aeD7KpJNRI>.
3. Mbassi Awa H-D, Bekono A, Tamgnoue G-A, Bengondo Messanga C, Koki Ndombo P-O. Hygiène Buccodentaire, Formes Cliniques des Lésions Carieuses et Parodontopathies chez les Enfants Handicapés dans Deux Centres Spécialisés de Yaoundé. Health Sciences and Disease. 1 Feb 2018;19 (1).
4. Acerbi A.G; De Freitas C; De Magalhaes M.H. Prevalence of numeric anomalies in the permanent dentition of patients with Down syndrome. Spec. Care Dentist. 2001; 21: 75-78.
5. Sakellari D; Belibasakis G; Chadjipadelis T. et al. Supragingival and subgingival microbiota of adult patients with Down's syndrome. Change after periodontal treatment. Oral. Microbiol. Immunol. 2001; 16: 376-384.
6. Desai S.S. Down syndrome: a review of literature.Oral surg.Oral Med.Oral pathology.Endocl,1997,84:279-285.
7. Polh.J. La trisomie 21 chez l'adulte en Alsace: un état des lieux de la santé buccodentaire. 16 Mai 2019 ;60-61.
8. Lefaiivre J.F; Cohen S.R; Burstein F.O; et al. Down syndrome: identification and surgical management of obstructive sleep apnea. Piast. Reconstr. Surg., 1997, 99 : 629-637.
9. Ashworth A, Hill CM, Karmiloff-smith A, Dimitrio D. Cross syndrome comparison of sleep problems in children with Down syndrome and Williams syndrome. Res Dev disabil. Mai 2013;34(5): 1572-80.
10. Hanookai O; Nowzari H; Contreras A; et al. Herpesvirus and periodontic bacteria in trisomy 21 periodontitis. J. Peridontol, 2000, 71 : 376-384.
11. Yarat A; Akyus S; Koc L; et al. Salivary sialic acid, protein, salivary flow rate, pH, buffering capacity and caries indices in subjects with Down syndrome. J. Dent., 1999, 27 : 115-118.
12. Hoyer H; Limbrock G.H. Orofacial regulation therapy in children with Down syndrome, using the methods and appliances of Castillo-Morales. ASDC J. Dent. Child.1990; 57 : 442-444.