

RÉSUMÉ

Introduction

Mycobacterium ulcerans est connue pour être à l'origine de l'ulcère de Buruli (UB), une infection cutanée nécrosante entraînant une destruction étendue des tissus cutanés et sous-cutanés conduisant à des séquelles fonctionnelles importantes. Cependant, les infections à *M. ulcerans* ne sont pas limitées à la peau : des atteintes osseuses (ostéomyélites) peu décrites dans la littérature sont observées chez de nombreux jeunes patients, notamment en Afrique.

Matériel et méthodes

Dans une étude rétrospective cas-témoin appariée réalisée dans une zone à forte incidence au Bénin, nous avons analysé les aspects démographiques, cliniques, biologiques et radiologiques de tous les cas d'infection à *M. ulcerans* avec atteinte osseuse identifiés parmi une cohorte de 1 257 infections à *M. ulcerans* confirmées par PCR.

Résultats

L'âge médian (IQ) des 81 cas analysés était de 11 (7-16) ans avec une prédominance masculine (sexe-ratio 2:1). Les ostéomyélites étaient observées sous une lésion active d'UB (60,5 %) ou à distance d'une lésion active ou cicatricielle d'UB (14,8 %) mais également en dehors de tout antécédent de lésion cutanée d'UB (24,7 %). L'évolution lente et insidieuse de ces lésions et leur aspect clinique aspécifique conduisaient à un retard de diagnostic.

La comparaison de ces 81 cas aux 243 témoins, patients atteints d'UB sans lésion osseuse appariés sur l'âge et le sexe, montrait qu'ils étaient moins susceptibles que les témoins d'avoir été vaccinés par le BCG (33,3 % *versus* 52,7 %, $p=0,01$). Ils étaient hospitalisés plus longtemps (118 *versus* 69 jours) et étaient plus à risque d'avoir été opérés (92,6 % *versus* 63,0 %, $p=0,0001$) et de présenter des séquelles fonctionnelles invalidantes à long terme (55,6 % *versus* 15,2 %, $p<0,0001$).

Conclusion

Cette analyse met en évidence les difficultés du diagnostic des ostéomyélites à *M. ulcerans*, un quart des patients de l'étude n'ayant pas d'histoire clinique récente ou ancienne de lésion cutanée d'UB. Le retard à la mise en route du traitement est à l'origine d'une proportion élevée (55,6 %) de patients présentant des séquelles invalidantes.

ABSTRACT

Background

Mycobacterium ulcerans is known to cause Buruli ulcer (BU), a necrotising skin disease leading to extensive cutaneous and subcutaneous destruction and functional limitations. However, *M. ulcerans* infections are not limited to skin, and osteomyelitis, yet poorly described in the literature, occurs in numerous young patients in Africa.

Methods

In a retrospective matched case-control study conducted in a highly endemic area in Benin, we analysed demographics, clinical, biological and radiological features of all cases of *M. ulcerans* infections with bone involvement identified among a cohort of 1,257 PCR-proven *M. ulcerans* infections.

Findings

The median age (IQR) of the 81 cases analysed was 11 (7-16) years with a predominance of males (sex-ratio 2:1). Osteomyelitis was observed beneath active BU lesions (60.5%) or at a distance from active or apparently healed BU lesions (14.8%), but also without history of BU skin lesions (24.7%). These lesions had an insidious course with unspecific clinical aspects leading to delayed diagnosis.

The comparison to 243 age- and sex-matched BU patients without osteomyelitis showed that case patients were less likely to have received BCG immunization than controls (33.3% versus 52.7%, $p=0.01$). They were also at higher risk of longer hospital stay (118 versus 69 days, $p=0.0001$), surgery (92.6% versus 63.0%, $p=0.0001$) and long term crippling sequelae (55.6% versus 15.2%, $p<0.0001$).

Interpretation

This study highlighted the difficulties associated with diagnosis of *M. ulcerans* osteomyelitis with one fourth of patients having no visible past or present history of BU skin lesions. Delays in treatment contributed to the high proportion (55.6%) of patients with crippling sequelae.