

^a Service de rhumatologie, centre hospitalier
Lyon-Sud, 165, chemin du Grand-Revoynet, 69495
Pierre-Bénite, France

^b Université Lyon I, 69007 Lyon, France

^c Service de pneumologie, centre hospitalier
Lyon-Sud, 69495 Pierre-Bénite, France

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : cam27@hotmail.fr (C. Vigne)

Accepté le 29 mai 2012

Disponible sur Internet le 21 décembre 2012

<http://dx.doi.org/10.1016/j.rhum.2012.06.011>

Calcinose universelle compliquant une dermatomyosite juvénile : amélioration sous immunoglobulines intraveineuses[☆]

IN F O A R T I C L E

Mots clés :

Calcinose universelle
Dermatomyosite juvénile
Immunoglobulines intraveineuses

La calcinose universelle est une complication sévère et invalidante de la dermatomyosite juvénile (DMJ). Il n'existe pas de traitement spécifique et la réponse thérapeutique est inconstante. Nous décrivons l'observation d'un jeune patient qui présente une DMJ compliquée d'une calcinose universelle invalidante et réfractaire, résolutive sous immunoglobulines intraveineuses.

1. Observation

Nous rapportons l'observation d'un jeune patient suivi depuis l'âge de dix ans pour une DMJ révélée par des polyarthralgies inflammatoires, des myalgies, une fatigabilité musculaire intense associés à des signes cutanés (œdème liliacé des paupières et papules de gottrons). Les enzymes musculaires étaient élevés, notamment les créatinines phosphokinases (CPK). L'électromyogramme était en faveur d'une atteinte myogène. La biopsie musculaire avait objectivé des lésions de myopathie inflammatoire. Le patient a été mis sous faible dose de corticothérapie, associée au méthothrexate. L'évolution a été marquée par l'apparition d'une calcinose universelle. Plusieurs thérapeutiques ont été administrées, dont 20 bolus de pamidronate, ciclosporine (un an), diltiazem (sept mois), l'alendronate (un an), probénécide (six mois) et colchicine, sans succès. Les foyers de calcifications se fistulisaient source d'infections. Un traitement par immunoglobulines intraveineuses a été introduit à la dose de 2 g/kg par mois. Les foyers de calcifications ont été marqués puis photographiés, ainsi que des radiographies standards ont été effectuées avant et après traitement par IGIV. Le bilan biologique était par ailleurs normal. Dès la quatrième cure, le patient a noté une diminution des myalgies et de la fatigabilité musculaire permettant la dégression progressive de la corticothérapie. Aucun nouveau foyer de calcification n'a été retrouvé et surtout aucune fistulisation n'a été notée. Le bilan des foyers de calcifications clinique (**Matériel complémentaire : Fig. S1**) et radiologique (**Fig. 1**) a montré une régression notable de ces foyers, notamment au niveau de la région sacrée et des genoux qui

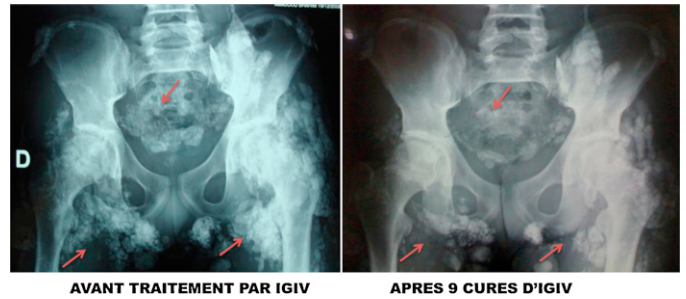


Fig. 1. Radiographies du bassin face, avant « A » et après traitement par immunoglobulines intraveineuses « B », montrant une régression des calcifications.

n'étaient plus en flessus avec disparition de la boiterie. Après sept an de recul, l'efficacité des IGIV est maintenue.

2. Discussion

L'efficacité des IGIV dans les dermatomyosites a été bien établit notamment dans les formes corticorésistantes [1–4]. Néanmoins, seules quelques observations ont montré leur efficacité dans la calcinose universelle. Yang a rapporté une régression des foyers de calcinose sous IGIV chez un garçon de dix ans suivi pour une calcinose universelle [5]. Slimani et al. ont rapporté une régression complète d'une calcinose universelle compliquant une dermatomyosite chez une fille de 14 ans après deux ans de traitement par pamidronate (2 mg/kg par an) [6].

Dans notre observation, malgré les différents traitements proposés, la calcinose était réfractaire. Après administration des IGIV, aucun foyer ne s'est fistulisé et dès la quatrième perfusion, la corticothérapie a pu être diminuée. L'évaluation clinique et radiologique de ces foyers avant et après neuf mois de traitements, a montré une régression des calcifications.

Néanmoins, outre les effets spécifiques des immunoglobulines intraveineuses, nous ne pouvons écarter l'éventuelle résolution spontanée de la calcinose, voir même la participation des autres traitements pris antérieurement, particulièrement les bisphosphonates.

En résumé, notre observation suggère l'efficacité des IGIV dans le traitement de la calcinose universelle réfractaire aux différents traitements proposés dans la littérature.

Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Annexe A. Matériel complémentaire

Le matériel complémentaire (Fig. S1) accompagnant la version en ligne de cet article est disponible sur <http://www.sciencedirect.com> et <http://dx.doi.org/10.1016/j.rhum.2012.06.004>.

Références

- [1] Al-Mayouf SM, Laxer RM, Schneider E, et al. Intravenous immunoglobulin therapy for juvenile dermatomyositis: efficacy and safety. *J Rheumatol* 2000;27:2498–503.
- [2] Cherin P, Herson S, Wechsler B, et al. Efficacy of intravenous immunoglobulin therapy in chronic refractory polymyositis and dermatomyositis: an open study with 20 adult patients. *Arthritis Rheum* 1991;34:162–8.

[☆] Ne pas utiliser, pour citation, la référence française de cet article, mais la référence anglaise de *Joint Bone Spine* (<http://dx.doi.org/10.1016/j.jbspin.2012.07.001>).

- [3] Lang BA, Laxer RM, Murphy G, et al. Treatment of dermatomyositis with intravenous gammaglobulin. *Am J Med* 1991;91:169–72.
- [4] Vedanarayanan V, Subramony SH, Ray LI, et al. Treatment of childhood dermatomyositis with high dose intravenous immunoglobulin. *Pediatr Neurol* 1995;13:336–9.
- [5] Yang MC. Improvement of juvenile dermatomyositis with calcinosis universalis after treatment with intravenous immunoglobulin. *Int J Rheum Dis* 2008;11:77–80.
- [6] Slimani S, Abdessemed A, Haddouche A, et al. Complete resolution of universal calcinosis in a patient with juvenile dermatomyositis using pamidronate. *Joint Bone Spine* 2010;77:70–2.

Meriem Touimy*
Saadia Janani
Wafae Rachidi
Noufissa Étaouil
Ouafa Mkinsi

Service de rhumatologie, CHU Ibn Rochd, 1, rue des hôpitaux, Casablanca, Maroc

* Auteur correspondant. 38, rue Ibn Toumert, CP 20490, Casablanca, Maroc.
Adresse e-mail : mtouimy@gmail.com (M. Touimy)

Accepté le 7 juin 2012

Disponible sur Internet le 24 juillet 2012

<http://dx.doi.org/10.1016/j.rhum.2012.06.004>

Des cellules mononuclées CD14^{bright}LAP⁺ du sang périphérique sont en corrélation positive avec les scores de BASRI chez des patients atteints de spondylarthrite ankylosante: une étude pilote*

INFORMATIONS

Mots clés :

Spondylarthrite ankylosante
Monocytes
Facteur de croissance transformant bêta
Peptide associé à la latence

La spondylarthrite ankylosante (SA) est un trouble rhumatologique inflammatoire chronique sans pathogenèse définie. L'évolution de la SA est mesurée par une nouvelle formation osseuse, l'apparition de syndesmophytes et enfin par l'ankylose des articulations sacro-iliaques et de la colonne vertébrale [1]. Les facteurs influençant la variabilité significative du taux et de la magnitude de nouvelles formations osseuses chez une personne atteinte de SA sont encore mal compris. Comme le facteur de croissance transformant bêta (TGF- β 1) peut selon toutes vraisemblances avoir les propriétés d'un régulateur de la formation osseuse dérivé de l'inflammation dans la SA, nous avons conduit une étude pilote examinant l'expression en surface du peptide associé à la latence (LAP), une protéine formant des complexes inactifs avec TGF- β 1, sur les monocytes du sang périphérique de patients atteints de SA.

1. Méthodes

Quinze patients atteints de SA, correspondant aux critères modifiés de New York (1984), ont signé le consentement libre et éclairé et ont donné 10 ml de sang périphérique. Les données des patients

* Ne pas utiliser, pour citation, la référence française de cet article, mais la référence anglaise de *Joint Bone Spine* avec le doi ci-dessus.

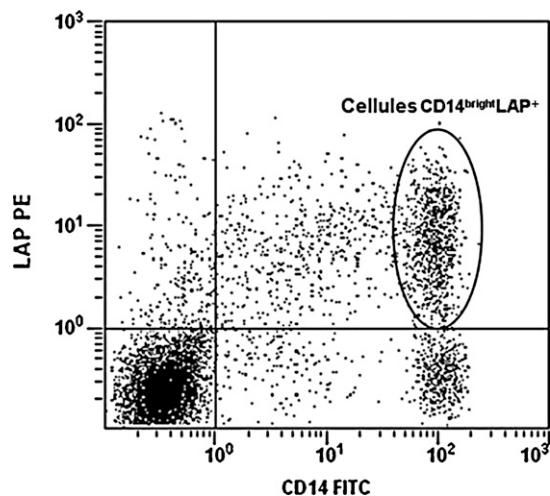


Fig. 1. Sous-population de cellules mononuclées CD14^{bright}LAP⁺.

ont été recueillies à partir des tableaux cliniques, et les radiographies disponibles, effectuées lors des deux dernières années, ont été revues. Les scores de Bath AS Radiology Index (BASRI) pour les articulations sacro-iliaques et le rachis lombaire étaient calculés pour tous les patients. Deux groupes témoins étaient composés de 6 patients séropositifs pour la polyarthrite rhumatoïde et de 7 volontaires sains.

Les cellules mononuclées ont été obtenues à partir du sang périphérique après séparation de gradient par centrifugation sur Ficoll, ont été marquées avec des anticorps monoclonaux humains anti CD14-FITC, CD16-PC5, HLA-DR-PC5 (tous, IO Test Immunotech, France) et LAP (TGF- β 1)-PE (systèmes R&D) et analysées en cytomètre de flux (Beckman Coulter; BD Biosciences) fonctionnant avec le logiciel CellQuest (Becton Dickinson, Mountain View, CA). Les pourcentages des sous-populations de monocytes, comme définis par la coloration anti-CD14/anti-LAP ont été calculés, et l'intensité cytométrique de flux moyenne (IFM) de la coloration anti-LAP a été enregistrée.

Le test de Mann-Whitney pour les mesures non appariées a été utilisé pour les comparaisons entre groupes. Les corrélations ont été examinées grâce au coefficient de corrélation de Pearson.

2. Résultats

2.1. Patients

Onze hommes et 4 femmes atteints de SA ont fait partie de l'étude. L'âge moyen des patients atteints de SA était de 36 ± 14 ans, et la durée moyenne de la maladie était de $10,2 \pm 8$ ans. Quatorze des 15 patients ont été traités avec un agent anti TNF- α .

2.2. La coloration anti-LAP des cellules CD14⁺

La population des cellules CD14^{bright}LAP⁺ a été définie comme le montre la Fig. 1. Les nombres et l'IFM des cellules CD14^{bright}LAP⁺ a démontré une variabilité significative, n'étant pas différente cependant entre les patients atteints de SA, de PR ou les volontaires sains. Dans le groupe de patients atteints de SA une corrélation positive significative a été observée entre les pourcentages de cellules CD14^{bright}LAP⁺ et les scores de BASRI (Fig. 2, $r = 0,64$, $p < 0,01$), tout comme pour l'IFM de la coloration LAP et les scores de BASRI ($r = 0,73$, $p < 0,003$).