

**UNIVERSITE TOULOUSE III – PAUL SABATIER**  
**FACULTE DE SANTE – DEPARTEMENT D'ODONTOLOGIE**

---

ANNEE 2022

2022 TOU3 3047

**THESE**

POUR LE DIPLOME D'ETAT DE DOCTEUR EN CHIRURGIE DENTAIRE

Présentée et soutenue publiquement

par

**Théo BARANGE**

le 03 octobre 2022

**IMPACTS DE L'ATRESIE DES VOIES BILIAIRES SUR**  
**L'ESTHETIQUE DU SOURIRE CHEZ LE SUJET JEUNE**

Directeur de thèse : Pr Frédéric VAYSSE

**JURY**

Président : Pr Franck DIEMER  
1<sup>er</sup> assesseur : Pr Frédéric VAYSSE  
2<sup>ème</sup> assesseur : Dr Delphine MARET-COMTESSE  
3<sup>ème</sup> assesseur : Dr Mathieu MARTY  
Membre invité : Dr Pierre BROUE



**UNIVERSITÉ**  
**TOULOUSE III**  
**PAUL SABATIER**



Université  
de Toulouse

**Faculté de santé  
Département d'Odontologie**

➔ **DIRECTION**

**Doyen de la Faculté de Santé**

M. Philippe POMAR

**Vice Doyenne de la Faculté de Santé**

**Directrice du Département d'Odontologie**

Mme Sara DALICIEUX-LAURENCIN

**Directeurs Adjointes**

Mme Sarah COUSTY

M. Florent DESTRUHAUT

**Directrice Administrative**

Mme Muriel VERDAGUER

**Présidente du Comité Scientifique**

Mme Cathy NABET

➔ **HONORARIAT**

**Doyens honoraires**

M. Jean LAGARRIGUE +

M. Jean-Philippe LODTER +

M. Gérard PALOUDIER

M. Michel SIXOU

M. Henri SOULET

**Chargés de mission**

M. Karim NASR (*Innovation Pédagogique*)

M. Olivier HAMEL (*Maillage Territorial*)

M. Franck DIEMER (*Formation Continue*)

M. Philippe KEMOUN (*Stratégie Immobilière*)

M. Paul MONSARRAT (*Intelligence Artificielle*)

➔ **PERSONNEL ENSEIGNANT**

**Section CNU 56 : Développement, Croissance et Prévention**

**56.01 ODONTOLOGIE PEDIATRIQUE et ORTHOPEDIE DENTO-FACIALE** (Mme Isabelle BAILLEUL-FORESTIER)

**ODONTOLOGIE PEDIATRIQUE**

Professeurs d'Université : M. Isabelle BAILLEUL-FORESTIER, M. Frédéric VAYSSE

Maîtres de Conférences : Mme Emmanuelle NOIRRI-ESCLASSAN, Mme Marie- Cécile VALERA, M. Mathieu MARTY

Assistants : Mme Marion GUY-VERGER,

Adjointes d'Enseignement : M. Sébastien DOMINE, M. Robin BENETAH, M. Mathieu TESTE,

**ORTHOPEDIE DENTO-FACIALE**

Maîtres de Conférences : M. Pascal BARON, Mme Christiane LODTER, M. Maxime ROTENBERG

Assistants : M. Vincent VIDAL-ROSSET, Mme Carole VARGAS

Adjointes d'Enseignement : Mme. Isabelle ARAGON

**56.02 PRÉVENTION, ÉPIDÉMIOLOGIE, ÉCONOMIE DE LA SANTÉ, ODONTOLOGIE LÉGALE** (Mme NABET Catherine)

Professeurs d'Université : M. Michel SIXOU, Mme Catherine NABET, M. Olivier HAMEL, M. Jean-Noël VERGNES

Assistante : Mme Géromine FOURNIER

Adjointes d'Enseignement : M. Alain DURAND, Mlle. Sacha BARON, M. Romain LAGARD, M. Jean-Philippe GATIGNOL

Mme Carole KANJ, Mme Mylène VINCENT-BERTHOUMIEUX, M. Christophe BEDOS

**Section CNU 57 : Chirurgie Orale, Parodontologie, Biologie Orale**

**57.01 CHIRURGIE ORALE, PARODONTOLOGIE, BIOLOGIE ORALE** (M. Philippe KEMOUN)

**PARODONTOLOGIE**

Maîtres de Conférences : Mme Sara DALICIEUX-LAURENCIN, Mme Alexia VINEL, Mme. Charlotte THOMAS

Assistants : M. Joffrey DURAN

Adjointes d'Enseignement : M. Loïc CALVO, M. Christophe LAFFORGUE, M. Antoine SANCIER, M. Ronan BARRE ,

Mme Myriam KADDECH, M. Matthieu RIMBERT,

### CHIRURGIE ORALE

Professeur d'Université : Mme Sarah COUSTY  
Maîtres de Conférences : M. Philippe CAMPAN, M. Bruno COURTOIS  
Assistants : M. Clément CAMBRONNE  
Adjoints d'Enseignement : M. Gabriel FAUXPOINT, M. Arnaud L'HOMME, Mme Marie-Pierre LABADIE, M. Luc RAYNALDY,  
M. Jérôme SALEFRANQUE,

### BIOLOGIE ORALE

Professeur d'Université : M. Philippe KEMOUN  
Maîtres de Conférences : M. Pierre-Pascal POULET, M. Vincent BLASCO-BAQUE, M. Matthieu MINTY  
Assistants : Mme Chiara CECCHIN-ALBERTONI, M. Maxime LUIS, Mme Valentine BAYLET GALY-CASSIT  
Adjoints d'Enseignement : M. Mathieu FRANC, M. Hugo BARRAGUE, M. Olivier DENY

## **Section CNU 58 : Réhabilitation Orale**

### 58.01 DENTISTERIE RESTAURATRICE, ENDODONTIE, PROTHESES, FONCTIONS-DYSFONCTIONS, IMAGERIE, BIOMATERIAUX (M. Franck DIEMER)

#### DENTISTERIE RESTAURATRICE, ENDODONTIE

Professeur d'Université : M. Franck DIEMER  
Maîtres de Conférences : M. Philippe GUIGNES, Mme Marie GURGEL-GEORGELIN, Mme Delphine MARET-COMTESSE  
Assistants : M. Sylvain GAILLAC, Mme Sophie BARRERE, Mme. Manon SAUCOURT, M. Ludovic PELLETIER  
M. Nicolas ALAUX, M. Vincent SUAREZ  
Adjoints d'Enseignement : M. Eric BALGUERIE, M. Jean- Philippe MALLET, M. Rami HAMDAN, M. Romain DUCASSE,  
Mme Lucie RAPP

#### PROTHÈSES

Professeurs d'Université : M. Philippe POMAR  
Maîtres de Conférences : M. Rémi ESCLASSAN, M. Florent DESTRUHAUT, M. Antoine GALIBOURG,  
Assistants: Mme Margaux BROUTIN, Mme Coralie BATAILLE, Mme Mathilde HOURSET, Mme Constance CUNY  
M. Julien GRIFFE  
Adjoints d'Enseignement : M. Christophe GHRENASSIA, Mme Marie-Hélène LACOSTE-FERRE, M. Olivier LE GAC, M. Jean-  
Claude COMBADAZOU, M. Bertrand ARCAUTE, M. Fabien LEMAGNER, M. Eric SOLYOM,  
M. Michel KNAFO, M. Alexandre HEGO DEVEZA, M. Victor EMONET-DENAND M. Thierry DENIS,  
M. Thibault YAGUE

#### FONCTIONS-DYSFONCTIONS, IMAGERIE, BIOMATERIAUX

Maîtres de Conférences : Mme Sabine JONJOT, M. Karim NASR, M. Paul MONSARRAT, M. Thibault CANCEILL  
Assistants : M. Julien DELRIEU, M. Paul PAGES, Mme. Julie FRANKEL  
Adjoints d'Enseignement : Mme Sylvie MAGNE, M. Thierry VERGÉ, M. Damien OSTROWSKI

Mise à jour pour le 01 Septembre 2022

***Au président du jury***

**Monsieur le Professeur Franck DIEMER,**

- Professeur des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie
- Docteur en Chirurgie Dentaire
- D.E.A. de Pédagogie (Education, Formation et Insertion) Toulouse Le Mirail
- Docteur de l'Université Paul Sabatier
- Responsable du comité scientifique de la Société française d'Endodontie
- Responsable du Diplôme Inter Universitaire d'Endodontie à Toulouse
- Responsable du Diplôme universitaire d'hypnose
- Co-responsable du diplôme Inter-Universitaire d'odontologie du Sport
- Lauréat de l'Université Paul Sabatier

*Vous me faites l'honneur de présider le jury de ma thèse et je vous en suis très reconnaissant. Je vous remercie pour votre implication dans la formation théorique et pratique auprès des étudiants ainsi que pour votre bienveillance. Votre écoute et vos conseils dans les moments de doute où il a parfois fallu prendre des décisions ont été précieux pour moi. Merci pour votre gentillesse et les moments passés au bloc opératoire ou en encadrement des travaux pratiques. J'ai beaucoup appris à vos côtés, tant d'un point de vue technique que d'un point de vue humain de par votre écoute du patient et la pratique de l'hypnose. Je vous prie de croire en la sincérité de ma reconnaissance et de mon plus profond respect.*

## **À mon directeur de thèse**

### **Monsieur le Professeur Frédéric VAYSSE,**

- Professeur des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie,
- Lauréat de l'Université Paul Sabatier

*J'ai été très touché par l'honneur que vous m'avez fait en acceptant la mission de diriger mon travail de thèse. Je vous suis sincèrement reconnaissant de l'aide que vous avez su m'apporter à chaque étape de la réalisation de ce travail, de votre gentillesse et de votre disponibilité. Votre soutien permanent, vos encouragements et votre motivation m'ont donné envie d'aller toujours plus loin. Merci pour la qualité de votre écoute et pour le savoir que vous m'avez transmis tout au long de ces années. Je sais l'importance que ce travail représente pour vous et j'espère qu'il sera à la hauteur de votre implication afin d'obtenir les résultats souhaités. Je vous remercie de m'avoir ouvert les portes de votre consultation qui m'a permis d'observer cliniquement la problématique principale et d'échanger directement avec les patients. Qu'il me soit permis de vous témoigner ma gratitude et mon plus profond respect à travers ce travail de fin d'études.*

## ***À mon jury de thèse***

### **Madame le Docteur Delphine MARET-COMTESSE,**

- Maître de Conférences des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie
- Docteur en Chirurgie Dentaire
- Doctorat de l'Université de Toulouse
- Diplôme Universitaire d'Imagerie 3D
- Master 2 Recherche Épidémiologie Clinique
- CES d'Odontologie Légale
- Diplôme Universitaire de Recherche Clinique en Odontologie (DURCO)
- Enseignant-chercheur, Laboratoire Anthropologie Moléculaire et Imagerie de Synthèse (AMIS) CNRS
- Habilitation à Diriger des Recherches (H.D.R.)
- Lauréate de l'Université Paul Sabatier

*Je vous remercie d'avoir accepté de rejoindre mon jury de thèse et en suis honoré. Veuillez croire en l'expression de mon plus grand respect pour la qualité de votre enseignement.*

*Permettez-moi de vous témoigner ma sincère reconnaissance.*

## **À mon jury de thèse**

### **Monsieur le Docteur Mathieu MARTY,**

- Maître de Conférences des Universités, Praticien Hospitalier d'Odontologie
- Docteur en Chirurgie Dentaire
- CES de Chirurgie Dentaire Odontologie Pédiatrique et Prévention
- CES de Physiopathologie et diagnostic des dysmorphies cranio-faciales
- Master 2 Sciences de l'éducation Université Paul VALERY Montpellier 3
- Doctorat en Sciences de l'éducation Université Paul VALERY Montpellier 3

*Qui m'a fait l'honneur de participer à ce travail et sans qui cela n'aurait pas été possible.*

*Un très grand merci pour votre disponibilité et votre réactivité tout au long de la préparation de cette thèse. Votre soutien sans faille, vos conseils et votre enthousiasme ont été un moteur pour moi. Merci pour votre gentillesse, votre spontanéité et votre gaîté avec lesquelles vous avez su m'encourager et me transmettre vos connaissances et votre goût pour l'odontologie pédiatrique tout au long de mes études. Veuillez trouver à travers ce travail l'expression de ma plus grande reconnaissance.*

## **À mon jury de thèse**

### **Monsieur le Docteur Pierre BROUE,**

- Praticien Hospitalier en Hépatologie Pédiatrique
- Docteur en médecine
- Coordonnateur médical du Centre de Référence des Maladies Héréditaires du Métabolisme, des Centres de Compétence pour l'Atrésie des Voies Biliaires et Cholestase Génétique, Maladies Inflammatoires des Voies biliaires et Hépatites Auto-immunes, Maladies Vasculaires du Foie et Maladie de Wilson de Toulouse

*Je vous remercie chaleureusement d'avoir accepté de siéger parmi le jury de ma thèse de fin d'études. Votre soutien et votre collaboration ont été d'une importance capitale tout au long de ce travail. Vous avez su m'apporter des données très précieuses depuis votre bureau ou depuis votre bateau. Je vous suis extrêmement reconnaissant de la confiance que vous avez su m'accorder en me laissant accéder à votre base de patients afin d'échanger avec eux, sans quoi ce travail n'aurait pas été possible.*

*Je vous prie d'agréer, monsieur, l'expression de mes meilleurs sentiments.*

**À mes parents**, qui m'ont toujours soutenu, aimé et qui ont tout mis en œuvre pour me voir réussir tout au long de ma scolarité. Vous y êtes pour beaucoup et cela n'aurait pas été possible sans vous. Je suis fier d'être votre fils et je vous aime. Mention spéciale à mon père dont l'exigence dans sa vie et dans son travail sont un exemple pour moi et sans qui cette thèse n'aurait jamais vu le jour.

**À mes frères**, Guillaume et Nathan qui ont su être à l'écoute, m'encourager et me supporter dans le travail. Vous êtes mes piliers et votre présence m'a donné une force inestimable. Quelle chance d'avoir une fratrie aussi soudée.

**Au reste de ma famille**, mes grands-parents Cathy et Jean-Paul, Janine et François ; mon oncle Frédéric, mes tantes Laure et Laurence, mes cousins et cousines notamment Martin et Hippolyte avec qui nous partageons des parcours communs. Merci pour votre soutien inconditionnel.

**À Enzo**, mon meilleur ami de promotion et premier binôme de clinique, avec qui j'ai tant partagé depuis le début. Les moments que nous avons traversés, joyeux comme quand tu m'hébergeais chez toi avant mon premier appartement, et plus tristes comme l'annonce d'une maladie grave ont été des épreuves qui nous ont lié à tout jamais et qui font que je ne pourrai jamais t'oublier. Tu es une personne formidable, pleine de gentillesse et d'écoute avec une histoire pleine de rebondissements. Notre rencontre a été très importante pour moi.

**À Valentin**, mon deuxième binôme avec qui j'ai beaucoup partagé, appris et rigolé. Malgré ton caractère, tu es une personne adorable et ce fut un plaisir d'évoluer en clinique à tes côtés.

**À Charles**, que j'ai connu tout petit et qui est comme un frère pour moi aujourd'hui avec qui j'ai tant partagé, refait le monde et qui a su m'épauler dans les moments de doute.

**À tous les autres**, les amis de longue date et ceux que j'ai rencontrés pendant mon cursus universitaire, étudiants ou enseignants, Paul, Malo, Thomas, François, Marine, Tristan, Rudy, Louise, Flavie, Khawla, Éloïse, Lola P., Julie, Thibaud, Mathias, Jérémy, Marin, Édouard, Louis, Paul G., Kévin R., Anaïs et Astrid, Julien Delrieu, Thibault Canceill, Paul Montsarrat, Damien Ostrowski, Sabine Joniot, Géromine Fournier, Sylvain Gaillac, Nicolas Alaux, Sophie Barrère, Jérôme Fisse, Antoine Trigalou, Marie Gurgel, Sophie Bonal, Marie-Cécile Valéra, Mathieu Minty, Philippe Pomar. Mais aussi aux personnes que j'ai rencontrés lors de mes collaborations et remplacements, Pauline, Sandrine, Manon, Camille, Adeline et Lola B. À toutes ces personnes qui m'ont accompagné pendant mes études ou à la fin, merci d'avoir été là, merci pour votre soutien, merci pour votre énergie et votre motivation. Tous ces moments resteront gravés pendant très longtemps.

## TABLE DES MATIÈRES

INTRODUCTION .....	12
I. PATIENTS ET MÉTHODE.....	13
A. APPROCHE GENERALE.....	13
B. RECUEIL DES DONNEES .....	14
C. ANALYSE DES DONNEES .....	14
D. CONSIDERATIONS ETHIQUES .....	15
II. RÉSULTATS .....	16
A. IMPACT SUR LA QUALITE DE VIE (TABLEAU 3) .....	18
B. LE BESOIN D'UNE PRISE EN CHARGE FINANCIERE PRECOCE .....	19
C. LE REGARD DES AUTRES .....	20
III. DISCUSSION .....	21
CONCLUSION .....	28
ANNEXES .....	29
I. RAPPELS ANATOMIQUES, FOIE ET VOIES BILIAIRES (13) .....	29
II. LA BILIRUBINE .....	31
III. L'ATRESIE DES VOIES BILIAIRES ET SA PRISE EN CHARGE .....	31
IV. DETAILS SUR L'INTERVENTION DE KASAÏ.....	33
V. LES CONSEQUENCES DE LA MALADIE SUR LES TISSUS BUCCO-DENTAIRES .....	35
VI. LE PRINCIPE DE L'ECLAIRCISSEMENT EXTERNE ET PROBLEME LIE A LA REGLEMENTATION .....	38
BIBLIOGRAPHIE.....	41
LISTE DES ILLUSTRATIONS .....	45

## INTRODUCTION

L'Atrésie des Voies Biliaires est une maladie congénitale rare du nouveau-né, affectant environ 1/20 000 naissances en Europe (1), dans laquelle on assiste à une obstruction progressive de l'arbre biliaire due à la fibrose des voies intra et extra hépatiques (2). Il s'agit d'une atteinte des voies biliaires appelée cholangiopathie oblitérante inflammatoire destructrice dont les effets comme la cirrhose sont irréversibles en l'absence de traitement dans les deux premiers mois de vie (3). On assiste à un décès avant l'âge de 2 ans en dehors de toute prise en charge chirurgicale comme l'hépto-porto-entérostomie (intervention de Kasai) et la transplantation hépatique (1,4). Ce sont les deux techniques de choix respectivement réalisées en première et en seconde intention chez les patients porteurs d'une Atrésie des Voies Biliaires (AVB). L'oblitération des voies biliaires entraîne le passage de la bilirubine dans le sang en proportions variables pouvant aller jusqu'à l'hyperbilirubinémie (HBR). Cela favorise le dépôt du pigment dans les tissus mous et les tissus minéralisés en formation. Les dents temporaires et les dents permanentes peuvent être atteintes (5). Elles adoptent alors une teinte pouvant aller du jaune au vert. On parle de *green teeth* (dents vertes). L'étendue et l'intensité de la dyschromie semblent directement liées à la rapidité de prise en charge et à la sévérité de la maladie (6,7).

À l'heure où l'esthétique du sourire occupe une place prépondérante dans notre société, les solutions proposées vont de l'éclaircissement externe aux facettes en composite ou en céramique, en passant par des restaurations adhésives directes mais sont laissées à la charge financière de ces jeunes patients. Les conséquences esthétiques et psychologiques deviennent d'autant plus préoccupantes lorsque l'enfant grandit (4).

L'objectif principal de ce travail est d'évaluer par une méthode qualitative l'impact esthétique et psychologique de l'atteinte dentaire sur la qualité de vie des patients, à partir d'un recueil de leur point de vue sur leur situation. Les objectifs secondaires sont : répondre à une demande esthétique avec des moyens techniques en accord avec les données acquises de la science, sensibiliser les décideurs politiques au vécu de ces jeunes patients pour lesquels rien n'est actuellement proposé, débloquer une prise en charge financière des soins.

La littérature ne contenant que des cas cliniques rapportés isolés, il s'agit ici de la première série de cas publiée concernant la dyschromie dentaire associée à l'Atrésie des Voies Biliaires en collaboration avec le Centre de Compétence pour l'AVB pédiatrique et adulte du Centre Hospitalier Universitaire (CHU) de Toulouse.

## I. PATIENTS ET MÉTHODE

### A. Approche générale

Il s'agit d'une étude unicentrique transversale. La méthodologie adoptée vise à obtenir une meilleure compréhension des conséquences des effets de l'Atrésie des Voies Biliaires sur les tissus dentaires. L'approche analytique est qualitative, adaptée pour comprendre les phénomènes sociaux dans le domaine de la santé, et déjà utilisée dans le contexte dentaire. La population recensée d'AVB à Toulouse regroupe 103 patients dont 44 succès, 4 décès dont 3 atteints de « dents vertes » ou *green teeth* (2 décès post transplantation hépatique et 1 sur liste d'attente), 55 patients greffés dont 3 échecs secondaires, et 52 atteints de « dents vertes » (Photo 1). Le choix de l'échantillon s'est porté sur des patients atteints d'AVB et de dyschromies dentaires âgés de 12 à 24 ans, période importante en termes d'intégration sociale et d'estime de soi, indépendamment de leur genre (8). Quinze patients ont été contactés parmi ceux des services d'hépatologie pédiatrique et adulte. La période de l'étude s'est étendue du mois de mars au mois de juin 2022.



*Photo 1 : Cas d'une patiente atteinte d'AVB et de dyschromie sévère, greffée à l'âge de 2 ans (photo prise au fauteuil dans le service d'odontologie de Toulouse)*

Pour la réalisation des entretiens, un appel à participation a été transmis par téléphone, par e-mail ou à l'oral à l'ensemble des patients sélectionnés ou à leurs parents dans le cas où ils étaient mineurs, avec une lettre de présentation de l'étude à l'appui, jointe en annexe de ce travail. Onze patients ont répondu favorablement et quatre n'ont pas donné suite à la prise de contact. Les entretiens se sont déroulés avec 20% des patients ayant une anomalie de teinte dentaire dans l'AVB. Le tableau ci-dessous (Tableau 1) regroupe les données des traitements de l'AVB pour les patients interrogés permettant de comprendre la liaison entre gravité de la maladie hépatique et sévérité de l'atteinte dentaire. Les patients ont tous bénéficié en période post-natale d'une intervention de Kasai puis d'une

transplantation hépatique. Il n'était pas nécessaire de rencontrer tous les patients en consultation puisque l'analyse thématique privilégie l'expression de leur expérience personnelle.

	Patient 1	Patient 2	Patient 3	Patient 4	Patient 5	Patient 6	Patient 7	Patient 8	Patient 9	Patient 10	Patient 11
<b>Genre</b>	Féminin	Féminin	Féminin	Féminin	Féminin	Féminin	Féminin	Féminin	Masculin	Masculin	Masculin
<b>Âge (ans)</b>	13	19	23	21	15	24	21	12	16	16	15
<b>Âge Kasaï</b>	1 mois	J26	J30	4mois et 3jours	2 mois	J30	J60	J58	2 mois	2mois et 5jours	18 jours
<b>Âge greffe</b>	2 ans	16/07/2005 (31 mois)	15/01/2001 (21mois)	6 mois	18 mois	17 mois	11/03/2003 (20 mois)	26/10/2011 (15 mois)	22 mois	08/11/2006 (12 mois)	10 mois
<b>TTT immuno-suppresseur actuel</b>	Advagraf	Neoral / Cellcept	Neoral	Advagraf	Advagraf	Neoral	Advagraf	Neoral	Neoral	Neoral	Neoral / Cellcept
<b>Notes</b>	Née 1 mois prématurée										
<b>Date naissance</b>	07/09/2008	28/12/2002	16/04/1999	17/04/2001	27/08/2006	01/11/1998	04/07/2001	20/07/2010	18/12/2005	15/11/2005	11/03/2007

Tableau 1 : Tableau regroupant les données des patients ayant accepté de participer à l'étude

## B. Recueil des données

Les entretiens individuels ont été menés dans les locaux du service d'odontologie de Toulouse en présence des patients ou à distance par téléphone. Il s'agissait d'entretiens semi-structurés sur un échantillon minimal de 10 patients, fixé a priori et potentiellement évolutif en fonction du degré d'atteinte de la saturation des données. Les discussions ont été conduites en français et sur une durée allant de 15 à 50 minutes. Un guide d'entretien a été élaboré avec l'aide de Frédéric Vaysse et de Mathieu Marty (MM) à partir des problématiques soulevées dans les objectifs de cette étude. Deux investigateurs (MM et Théo Barange) ont mené ces entretiens. Ils débutaient par des questions générales sur l'âge du patient, son métier ou son niveau d'étude (si étudiant.e), puis sur le point de vue du patient sur son propre sourire en grandissant, sa façon de le décrire et l'impact sur son quotidien. Les entretiens ont aussi abordé la question de la relation soignant-soigné et de la difficulté à trouver un praticien aux compétences adaptées. Le besoin de prise en charge financière des soins esthétiques par l'Assurance Maladie et les organismes complémentaires, ainsi que le rôle des décideurs politiques ont été évoqué au cours de ces discussions. Les entretiens ont été menés jusqu'à l'obtention de la saturation thématique.

## C. Analyse des données

Une analyse thématique des verbatims issus des entretiens individuels a été réalisée selon une approche hypothético-déductive. Elle permet de vérifier des thèmes (hypothèses) élaborés grâce à l'expérience clinique du praticien et la recherche bibliographique, ainsi que d'apporter de nouveaux thèmes qui n'étaient pas prévus avant l'analyse. Les

entretiens étaient enregistrés puis retranscrits par traitement de texte. La collecte et l'analyse continuaient jusqu'à l'obtention de la saturation des données et de la stabilité des conclusions.

L'analyse thématique s'est faite en suivant plusieurs étapes :

- retranscription des entretiens enregistrés au dictaphone, lecture et re-lecture des données, anonymisation ;
- codage des données, et regroupement des données affiliées à un même code par deux investigateurs (MM et TB). Le logiciel Nvivo (QDR international, Cambridge (MA), USA) a été utilisé pour le codage ;
- regroupement des différents codes en thèmes généraux, à la suite de l'analyse, sans détermination a priori ;
- organisation des thèmes (modifications, fusions et/ou suppressions) ;
- description des thèmes et illustrations avec des extraits de données ;
- rapport d'analyse, interprétation et discussion selon les objectifs de la recherche.

#### **D. Considérations éthiques**

Cette étude a été approuvée sur le plan éthique par la direction générale du CHU de Toulouse et le Centre de Compétence pour l'Atrésie des Voies Biliaires et Cholestases Génétiques coordonné par les docteurs Pierre Broué (hépatologue pédiatre) et Karl Barange (hépato-gastro-entérologue adulte). Ces derniers assurent également la consultation de transition d'hépatologie de l'enfant à l'adulte à partir de 15 ans permettant le maintien d'un suivi avec peu de patients perdus de vue au fil du temps (8).

Avant le début de l'entretien, les patients volontaires ont donné leur consentement après avoir été informés de :

- l'anonymat des participants (transcriptions ne faisant pas paraître les noms des participants ou de tiers, ou d'évènements permettant d'identifier le patient) ;
- la garantie que tout ce qu'ils évoqueraient au cours de l'entretien ne serait utilisé que dans le cadre d'une analyse anonyme des résultats, sans aucune conséquence possible sur la prise en charge médicale future ;
- du caractère volontaire du recrutement (possibilité de refuser).

## II. RÉSULTATS

L'analyse des données obtenues effectuée avec le logiciel Nvivo fait ressortir, à partir des entretiens réalisés, la fréquence des thèmes abordés, les mots qui reviennent le plus souvent, ainsi que les citations des patients associées.



Figure 1 : Diagramme illustrant les codes comparés par nombre de références d'encodage

La figure 1 représente la proportion des thèmes abordés lors des entretiens. Les trois thèmes les plus abordés avec les patients sont : 1) l'impact que peut avoir l'atteinte dentaire sur leur qualité de vie, leurs relations sociales, la difficulté à s'insérer dans la société ; 2) le problème financier lié à l'absence de prise en charge qui les contraint généralement à ne pas se faire soigner ; 3) le regard des autres sur leur différence notamment en milieu scolaire. Cela se traduit par des remarques, des moqueries voire du harcèlement et des enfants qui rentrent en pleurs à la maison ou qui n'osent plus sourire en montrant leurs dents.

Viennent ensuite d'autres thèmes liés à ces trois premiers : la demande d'une prise en charge précoce à l'âge où l'enfant commence à avoir une estime de soi afin de pouvoir « *sourire comme tout le monde sans attirer l'attention* » (Patient 3 ou Pt.3), la relation avec les chirurgiens-dentistes et orthodontistes qui semble bien se passer, la qualification de leurs dents avec leurs propres mots ainsi que l'âge de prise de conscience de la dyschromie, généralement au début de l'adolescence.



Thèmes	Citations des patients
Impact sur la qualité de vie	« L'enfance c'est la période où on peut être complexés et perdre confiance en soi à cause de son sourire, ça peut avoir un impact psychologique important » (Pt.7) « Je ne souris pas trop avec les dents. Je souris souvent la bouche fermée » (Pt.11)
Le besoin de prise en charge financière	« C'est hors de prix parce que c'est considéré comme de l'esthétique et pas comme dans le cadre de la maladie » (Pt.3) « Le dernier devis que j'ai fait s'élevait à 20.000€ pour 8 facettes en haut et 8 facettes en bas, ce qui n'était pas possible pour moi » (Pt.2)
Regard des autres	« A chaque fois on me demandait pourquoi j'avais les dents vertes et y'en avait toujours qui se moquaient par rapport aux dents » (Pt.8) « Ce qui m'a vraiment marqué c'est qu'on me disait que mes dents étaient couleur pisse ou couleur paille en 5 <sup>ème</sup> et 4 <sup>ème</sup> » (Pt.10)

Tableau 3 : Citations des patients (Pt.) illustrant les thèmes abordés

### A. Impact sur la qualité de vie (Tableau 3)

Les patients atteints de dyschromie dentaire dans le contexte de l'AVB décrivent leurs dents telles qu'ils les perçoivent quand ils se regardent dans un miroir : « *elles sont jaunes* » (Pts.2, 3, 10 et 11), « *elles sont vertes* » (Pts.1, 7, 8). Lorsqu'on leur demande de donner une note à leur sourire, celle-ci dépasse rarement la moyenne. Pour la plupart, ils se situent entre 3 et 5 sur une échelle de 0 à 10. Ces patients sont généralement exposés à une qualité de vie affectée par ce phénomène : « *Le sourire est très difficile à cacher surtout quand les colorations sont assez fortes ça peut complexer vraiment énormément* » (Pt.10). Ce sont des jeunes pour lesquels sourire demande un effort et provoque la peur de subir des remarques : « *Je n'ose pas sourire, je ne veux pas qu'on voit mes dents, dès qu'on sourit on ne voit que ça* » (Pt.2). Aujourd'hui et depuis plusieurs années, les jeunes des nouvelles générations sont vigilants à l'apparence physique qu'ils dégagent et à ce que les autres perçoivent d'eux, en lien avec des idéaux et des standards véhiculés par la publicité, les réseaux sociaux : « *Quand on voit les gens à la télé, avec la télé-réalité et qu'on voit leurs dents, ça rend encore plus complexé parce qu'ils nous font rêver. La mentalité des jeunes de mon âge est très axée sur le physique et sur l'apparence donc ça blesse encore plus* » (Pt.3). La différence peut être difficile à accepter pour les gens qui doivent vivre avec, et le fait de la cacher est parfois le seul moyen d'améliorer l'acceptation de soi quand cela est

possible : « *L'appareil dentaire lui sauve la vie, ça camoufle très bien* » (Pt.8), « *J'ai longtemps essayé de les cacher, comme j'avais le masque ça ne se remarquait pas trop* » (Pt.10). Les patients décrivent aussi des difficultés dans les interactions sociales, notamment affectives et professionnelles : « *On sait très bien que dans la vie adulte ça va être compliqué, professionnellement et quand il va faire des rencontres féminines par exemple, même avec une forme modérée* » (Pt.11), explique une maman. La notion de « complexe physique » revient systématiquement lors des entretiens. La prise de conscience de ce problème apparaît au début de l'adolescence, au collège vers les classes de 5<sup>ème</sup> ou 4<sup>ème</sup> (13-14 ans) mais parfois plus précocement dès l'école primaire : « *J'ai commencé à m'en rendre compte au collège, en 5<sup>ème</sup> ou 4<sup>ème</sup>, à force de me voir dans la glace et qu'on me dise que j'avais les dents noires, qu'on me le fasse remarquer* » (Pt.7). Enfin, la relation avec les soignants, dentistes ou orthodontistes est de bonne qualité. Ils ne semblent pas réticents à l'idée de prendre en charge ces enfants une fois qu'ils ont compris l'origine de l'anomalie et l'absence de risque lié à la prise en charge médicale : « *J'ai toujours été bien prise en charge* » (Pt.6), « *Il n'était pas perturbé, tout se passe très bien, il fait comme avec les autres enfants* » (Pt.8), « *C'est un jeune, il est très bien, il m'a demandé ce qu'elle avait, c'était la première fois qu'il voyait ça mais n'était pas choqué* » (Pt.1). Néanmoins, malgré la motivation des praticiens, les patients se retrouvent confrontés à la notion de « soins esthétiques » et l'absence de remboursement inhérente, contrairement à la prise en charge intégrale de la réfection chirurgicale de la cicatrice de laparotomie abdominale secondaire à la greffe hépatique. Les patients interrogés s'expriment en majorité sur la priorisation d'une prise en charge dentaire plutôt qu'abdominale, si un choix devait s'imposer : « *Même si la cicatrice pose problème, on peut la cacher avec les vêtements alors que le sourire est très difficile à cacher surtout quand les colorations sont assez fortes ça peut complexer vraiment énormément* » (Pt.10).

## **B. Le besoin d'une prise en charge financière précoce**

Afin d'améliorer leur qualité de vie et de ne pas être victimes de discrimination, ces patients sont demandeurs d'une prise charge esthétique pour avoir un sourire qui paraisse le plus naturel possible et pouvoir sourire en montrant leurs dents comme tout le monde : « *Toutes les familles ne peuvent pas se permettre de payer des blanchiments, des facettes...etc. ils n'ont pas les moyens, c'est pas sérieux, ils se rendent pas compte. Il s'agit*

*juste d'avoir un sourire normal* » (Pt.11). La méconnaissance de ce problème par les caisses de remboursement conduit à l'absence de prise en charge financière et laisse les patients sans solution face à des sommes très importantes : « *Ce n'est pas du tout pris en charge par la Sécurité Sociale donc ça chiffrait beaucoup et pour des gens modestes comme nous, on ne pouvait pas se le permettre à moins d'emprunter de l'argent* » (Pt.8). Ceux qui le peuvent seraient prêts à autofinancer les soins pour ne plus avoir ce problème mais jugent que cela n'est pas normal : « *Je me dis quand même qu'à long terme, même si c'est pas remboursé, je le ferai quand même par mes propres moyens. Je ne trouve pas ça normal. On devrait même pas se poser la question, surtout pour ceux qui le subissent au quotidien, au niveau professionnel, relationnel, familial* » (Pt.6). Les patients et leurs parents ne comprennent pas qu'un tel problème avec les conséquences qu'il peut avoir ne soit pas pris en charge par la Sécurité Sociale dans le cadre de la maladie et le vivent comme une injustice : « *Pour moi c'est dû à sa maladie donc elle doit être prise en charge à 100% y compris les dents* » (Pt.1), « *Nos enfants n'ont pas choisi cette maladie donc il est important de prendre en compte tout ce qui va avec* » (Pt.8). Une patiente complexée par son sourire a tenté d'obtenir une prise en charge exceptionnelle par la Sécurité Sociale avec appui de son médecin et de son dentiste mais s'est finalement vue opposer un refus : « *J'ai essayé par le biais de la Sécurité Sociale, par le biais de la mutuelle mais évidemment je me suis pris un refus. Je suis passée en commission et tout mais bon. Je trouve que ça serait bien de généraliser ce remboursement* » (Pt.6). Les patients s'accordent à dire qu'une prise en charge précoce leur aurait permis d'éviter tous les désagréments auxquels ils ont été confrontés durant leur enfance : « *La prise en charge devrait avoir lieu dès le plus jeune âge pour éviter les remarques qui peuvent blesser un enfant et pour que le résultat soit le plus naturel possible* » (Pt.7), « *Si ça avait été fait plus tôt elle n'aurait pas subi de harcèlement. Parce que les gosses, on sait que c'est moqueur (patiente en pleurs pendant que la maman parle avec les larmes aux yeux)* » (Pt.1).

### **C. Le regard des autres**

Ces jeunes patients sont victimes du regard des autres qui peut être jugeant et blessant : « *On me disait : T'as les dents jaunes, t'as pas de belles dents, brosse-toi les dents* » (Pt.2). Ils sont exclus du groupe à cause de leur différence provoquée par leur maladie. Les autres enfants ne semblent pas vouloir rester avec eux : « *Quand j'étais petite avec les moqueries*

*j'étais un peu laissée à l'écart » (Pt.2). Ces moqueries s'accumulent sans que personne en ait conscience et peuvent aller jusqu'au harcèlement dans la cour d'école : « Elle a été harcelée en primaire. Une année quatre gosses l'ont harcelé. Ils l'appelaient Shrek. C'est pas gentil. On lui disait que ses dents vertes ne ressemblaient à rien (pleurs de la patiente pendant que la maman parle). » (Pt.1). Les enfants sont sans concession les uns envers les autres et la différence est un sujet de tension difficile à accepter : « Les enfants jugent beaucoup, et de plus en plus tôt selon moi, avec les réseaux sociaux, la publicité...etc. On ne laisse pas assez de place à la différence. » (Pt.6). Le harcèlement touche les enfants peu entourés et qui ne savent pas comment réagir autrement qu'en s'isolant, qui ne le verbalisent pas, d'où un risque de retentissement sur le développement psychique : « J'allais pleurer aux toilettes quand je subissais des moqueries, et je rentrais chez moi sans rien dire à mes parents. Et c'était ça tous les jours. » (Pt.3). Au-delà de l'enfance, l'impact esthétique est aussi important à l'âge adulte dans la vie sociale et professionnelle, même si les adultes semblent plus tolérants ou plus discrets sur leur façon de penser : « En grandissant, à l'âge adulte, le regard des autres est aussi très important » (Pt.7). En période récente d'épidémie à COVID, le port obligatoire du masque dans l'espace public qui cache naturellement le sourire des gens si ce n'est la quasi-totalité du visage a aussi aidé ces patients à vivre en société : « Quand il y avait le masque j'étais contente. Au moins, on ne voyait pas mes dents et on ne me faisait pas de remarques » (Pt.3).*

### **III. DISCUSSION**

La littérature ne contenant que des observations isolées, nous publions la première série de cas concernant les impacts de l'Atrésie des Voies Biliaires sur l'esthétique du sourire. Ce travail a été possible grâce au Centre de Compétence pour l'AVB pédiatrique et adulte du Centre Hospitalier Universitaire de Toulouse. En médecine, l'âge légal entre le patient enfant et adulte se situe à 15 ans. La consultation de transition de l'enfant à l'adulte mise en place au sein de ce centre pour ne pas perdre de vue les patients et maintenir leur suivi régulier nous a permis d'inclure des patients de 12 à 24 ans.

Parmi les onze patients sélectionnés dans cette étude on retrouve une majorité de filles (huit), bien qu'il ne semble pas exister de prédisposition liée au genre dans cette maladie (9). Lors des entretiens, nous avons constaté que les garçons comme les filles sont demandeurs d'une prise en charge indépendamment de leur genre.

Nos données montrent que tous les patients ayant les dents vertes ont été en échec thérapeutique d'emblée, c'est-à-dire avec un ictère persistant pendant les six premiers mois de vie et ayant nécessité une greffe hépatique suite à l'hépto-porto-entérostomie. Un échec thérapeutique associé à un ictère et une hyperbilirubinémie augmente le risque d'avoir les dents vertes. Cela va dans le sens de la corrélation existante entre le degré d'atteinte dentaire et la sévérité de la maladie (6,10).

Les entretiens convergent majoritairement en faveur d'un besoin de prise en charge esthétique précoce pour ces jeunes patients complexés par leur sourire et sans solution. Sur onze patients interrogés, les huit les plus concernés par la dyschromie aimeraient bénéficier d'une solution esthétique pour leur sourire. Les trois autres atteints d'une forme plus légère ou ayant appris à vivre avec n'en ressentent pas le besoin immédiat mais donnent leur opinion sur l'importance d'une prise en charge pour les formes les plus importantes. Même si les patients contactés n'ont pas tous le même degré de dyschromie, ils s'accordent à dire que les dents doivent être considérées comme faisant partie intégrante des soins dans le cadre de la maladie. Ils ne trouvent pas normal que des enfants et adolescents soient laissés sans solution à l'heure où l'esthétique prend une place grandissante dans la société et où les moqueries peuvent avoir un effet néfaste sur l'assurance et la confiance que doit acquérir un enfant en grandissant.

Cette considération esthétique arrive après que la vie des patients ait été sauvée mais il existe un décalage qui n'est pas propre à l'AVB entre la notion de leur sauver la vie et celle du sourire qui sauve leur vie. Ce dernier les autorise à avoir une vie normale faite de relations sociales dans une société où elles s'appuient beaucoup sur l'apparence physique. Finalement, sauver la vie ne doit pas être synonyme d'une qualité de vie dégradée, surtout quand cela intervient dès l'enfance. L'exigence des patients contribue aussi aux progrès de la science et doit être prise en compte.

Les deux problèmes majeurs auxquels nous sommes confrontés aujourd'hui sont la législation et le remboursement. Les solutions techniques existent et sont réalisables en pratique mais l'absence d'autorisation légale ou de ressource financière limite les options de traitement. La France et l'Europe interdisent les thérapeutiques d'éclaircissement dentaire chez le patient mineur (directive du Conseil 2011/84/UE du 20 septembre 2011) alors qu'elles pourraient être un premier pas dans la prise en charge de ces patients. Comme le montre le cas que nous avons réalisé au CHU de Toulouse ainsi que le cas étudié par l'équipe du professeur Rangé (CHU d'Île de France APHP)(4), cette thérapeutique

s'avère efficace bien qu'insuffisante dans la gestion esthétique initiale de la dyschromie. Elle doit être suivie de restaurations composites ou céramiques de type facettes afin de recouvrir les dents et de masquer complètement le défaut de teinte avec une apparence qui soit la plus naturelle possible.

L'équipe d'odontologie pédiatrique du CHU de Toulouse a mis en œuvre une prise en charge esthétique chez une patiente de 13 ans (Pt.1) atteinte d'AVB et de dyschromie dentaire sévère (Photo 1). Le protocole s'est déroulé en plusieurs étapes. Dans un premier temps, une consultation de bilan avec prise de photographies a conduit à la décision de débiter par un éclaircissement externe de l'arcade maxillaire, la plus visible. On note que la démarcation entre la portion dyschromiée et la portion non dyschromiée des incisives centrales maxillaires permanentes correspond à la durée d'exposition à l'HBR. Sachant que la minéralisation du bord libre de ces dents s'effectue vers 3-4 mois et que la minéralisation cervicale a lieu vers 4-5 ans, la zone de démarcation observée dans notre cas (Photo 1) correspond à l'âge de guérison de la patiente soit 2 ans. L'éclaircissement est suivi par la conception au fauteuil de facettes en composite injecté sans préparation des dents pour des raisons techniques et économiques. La croissance n'étant pas terminée, les facettes céramiques définitives ne sont pas envisageables.

L'éclaircissement s'est déroulé sur 4 semaines après remise de la gouttière thermoformée maxillaire et du produit à base de peroxyde de carbamide concentré à 10% comme suggéré par Van B. Haywood (11,12). La patiente devait porter les gouttières avec le produit, après le repas et le brossage au moins une heure le premier soir, deux heures le deuxième soir, trois heures le troisième soir, jusqu'à arriver à les porter toute la nuit. En cas de sensibilités modérées, un dentifrice contre les sensibilités dentaires a été prescrit. En cas de sensibilités sévères, l'arrêt du traitement pendant une journée était préconisé avec une reprise du protocole sur la durée précédente ne les provoquant pas.



*Photo 2 : Résultat de 4 semaines d'éclaircissement externe*

A l'issue de ce traitement la patiente a été revue en consultation pour objectiver l'effet de l'éclaircissement (Photo 2). Les résultats étaient encourageants mais insuffisants pour répondre à la doléance esthétique de la patiente. La décision de faire des composites injectés a été prise, et le protocole s'est déroulé en cinq séances.



*Photo 3 : Confection des gouttières à partir du wax-up numérique*



*Photo 4 : Injection du bloqueur en technique 1/2*



*Photo 5 : Bloqueur en place pour une dent sur deux*



*Photo 6 : Bloqueur en place de canine à canine*



*Photo 7 : Résultat après injection des composites*



*Photo 8 : Polissage des composites injectés après retrait des excès*

Lors de la première séance, la prise d'une empreinte optique permet de réaliser un wax-up numérique. Le principe du wax-up en laboratoire de prothèse est d'augmenter ou de recréer le volume des dents avec de la cire montée à la main. C'est une maquette qui vise à ménager l'espace pour le futur matériau qui viendra ensuite remplacer la cire. Le wax-up numérique permet de faire la même chose de manière virtuelle, en 3D sur un ordinateur. Deux modèles 3D sont imprimés pour l'arcade maxillaire : un premier modèle avec le wax-up pour une dent sur deux et un deuxième modèle avec le wax-up sur toutes les dents. L'objectif est d'injecter les matériaux selon la technique une dent sur deux pour éviter qu'ils ne fusent dans les embrasures et n'adhèrent aux dents adjacentes. Ainsi, sur le premier modèle, une dent sur deux n'a pas de wax-up pour que la gouttière soit parfaitement adaptée et donc limiter la fusée des matériaux utilisés. Sur le deuxième modèle, toutes les dents ont un wax-up afin que la gouttière s'insère même avec la présence des nouvelles restaurations et toujours pour une adaptation optimale lors de l'insertion. Les gouttières utilisées pour l'injection sont réalisées dans la séance à partir des modèles 3D (Photo 3). Au deuxième rendez-vous, une couche de résine très opaque appelée bloqueur visant à masquer la dyschromie, est mise en place selon la technique une dent sur deux à l'aide

d'une gouttière perforée sur mesure (Photo 4). Du téflon est déposé sur les dents adjacentes pour ne pas que la résine fuse dans les embrasures pendant l'injection. Le bloqueur est injecté sur une dent pendant que les dents adjacentes sont protégées. Une fois l'opération terminée (Photo 5), la même chose est faite pour les dents restantes (Photo 6). La patiente se sent déjà mieux et commence à anticiper le résultat final.

Pendant le troisième rendez-vous, les composites injectés sont réalisés au fauteuil à l'aide de gouttières conçues sur la base d'un wax-up numérique. La résine est injectée selon la technique une dent sur deux, comme pour le bloqueur. Après deux séances dédiées au polissage (Photo 8), la patiente est très satisfaite du résultat même s'il reste perfectible (Photo 7). Toutes les photos sont prises lors des consultations dans le service d'odontologie de Toulouse avec l'accord de la patiente et de son responsable légal.

L'arcade du bas n'a pas été traitée en première intention. L'objectif était de masquer les dents les plus visibles du sourire lors de ce premier essai. Le rendu photographique avec une lumière intense laisse paraître une différence de teinte importante entre les dents. Elle est cependant bien moins marquée lors de l'observation à l'œil nu. L'encombrement dentaire observé sur les photos a rendu la pose de digue très compliquée, raison pour laquelle il a été décidé d'essayer sans, même si cela reste préférable et recommandé. Tous les moyens ont été mis en œuvre pour limiter au maximum la présence d'humidité sur les surfaces dentaires lors du protocole de collage réalisé de manière conventionnelle. L'arcade mandibulaire moins visible, sera traitée dans un second temps, après discussion avec l'orthodontiste et en fonction de l'évolution des composites maxillaires. La patiente qui n'hésite pas à appeler dans le service en cas de besoin, ne s'est pas présentée au dernier rendez-vous de contrôle, ce qui laisse penser que tout va bien.

Ce protocole bien que perfectible, semble être ce qu'il peut y avoir de plus pertinent comme prise en charge initiale pour des patients mineurs en cours de croissance et dont les dents n'ont pas toutes terminé leur éruption. Les dents n'ont pas besoin d'être préparées pour recevoir les restaurations qui peuvent être reprises à la demande en fonction d'éventuelles fractures du composite liées à la mastication ou à un traitement orthodontique par exemple. Un autre avantage de ce protocole est qu'il peut être considéré comme des restaurations composites classiques et facturé selon les tarifs de l'Assurance Maladie, donc remboursé intégralement. Malgré tout, le résultat esthétique n'est pas parfait. Une patiente plus âgée de 21 ans (Pt.7) déjà dans la vie active et ayant

bénéficié de ce type de prise en charge précise qu'elle reste quand même gênée et n'évalue son sourire qu'à 4 ou 5 sur une échelle de 0 à 10. « *Je trouve que ça se voit quand même, ce n'est pas très joli et ça ne fait pas naturel* », se confie-t-elle. Cela laisse comprendre que le traitement par composites directs au fauteuil est une bonne alternative pour les jeunes patients, mais qu'une prise en charge plus poussée par facettes céramiques afin d'obtenir un résultat le plus discret possible semble être le traitement de choix pour les patients adultes dont la denture n'est plus susceptible d'évoluer.

## CONCLUSION

L'Atrésie des Voies Biliaires (AVB) est une maladie rare (1/20 000 naissances) dont la prise en charge doit être pluridisciplinaire et gérée par un Centre de Compétence dans ce domaine, à l'image du CHU de Toulouse. La littérature ne contient que très peu d'articles abordant la problématique dentaire dans ce contexte.

Notre étude est la première série de cas publiée sur le sujet en s'intéressant à un effectif de onze patients. Les échanges avec les patients ont pu mettre en évidence une demande générale concernant la reconnaissance du problème dentaire lié à cette pathologie. L'impact sur la qualité de vie est majeur et ne peut être solutionné que par des soins d'esthétique dentaire le plus précocement possible, pour lesquels tout est disponible au plan technique.

À ce jour, en France, aucune prise en charge n'est proposée par les organismes de remboursement alors que le coût des soins s'étalant sur plusieurs mois de traitement varie de 10 à 20 mille euros. Les seuls freins existants relèvent donc des domaines légal et financier. Il devient urgent d'inclure l'esthétique dentaire dans la prise en charge globale de la maladie afin que les patients puissent retrouver un sourire satisfaisant et n'ayant plus de répercussion négative sur leur quotidien.

Un dépistage systématisé dans le milieu scolaire aux alentours des classes de maternelle ou de primaire lors des visites médicales déjà existantes pourrait aider à la mise en évidence et à la prise en charge des conséquences de cette maladie face au manque de connaissances des praticiens à ce sujet.

Vu le Président du Jury



Vu le directeur de thèse



## ANNEXES

### I. Rappels anatomiques, foie et voies biliaires (13)

Le foie est un organe de l'appareil digestif. Il participe à la fabrication et à l'excrétion de la bile mais aussi à d'autres fonctions métaboliques nombreuses. C'est un organe indispensable à la vie qui pèse environ 1500 grammes et qui occupe toute la région sous la coupole diaphragmatique droite, dans l'hypochondre droit. Il s'étend vers la gauche de l'abdomen du fait de son volume important et déborde sur l'épigastre et l'hypochondre gauche.

Il présente trois faces dont deux sont en rapport avec le diaphragme. Il y a la face ventro-supérieure dite diaphragmatique (Schéma 1) sur laquelle s'insère le ligament falciforme qui est un repli du péritoine (séreuse recouvrant le foie). La face dorsale (Schéma 2) sur la droite est en contact avec le diaphragme et la veine cave inférieure. La face inférieure est aussi appelée face viscérale car elle repose sur des organes abdominaux dont ceux de l'appareil digestif. On y trouve le hile (orifice d'entrée et de sortie de divers éléments qui constituent le pédicule hépatique). A droite et en avant du hile, la fosse de la vésicule biliaire. A gauche et avant, il y a le prolongement sur la face inférieure du ligament rond (vestige de la veine ombilicale) qui chemine dans un sillon : la fissure du ligament rond. En arrière on a la fosse du conduit veineux (canal d'Arantius) qui est une communication entre la veine ombilicale et la veine cave inférieure.

En avant du hile, entre la fosse de la vésicule biliaire et la fissure du ligament rond, une petite partie de la face inférieure du foie constitue le lobe carré. Une autre partie du foie sur la face inférieure prend le nom de lobe caudé en arrière du hile.

Anatomiquement, le foie est divisé en deux lobes majeurs par rapport au ligament falciforme : le lobe gauche et le lobe droit, beaucoup plus volumineux.

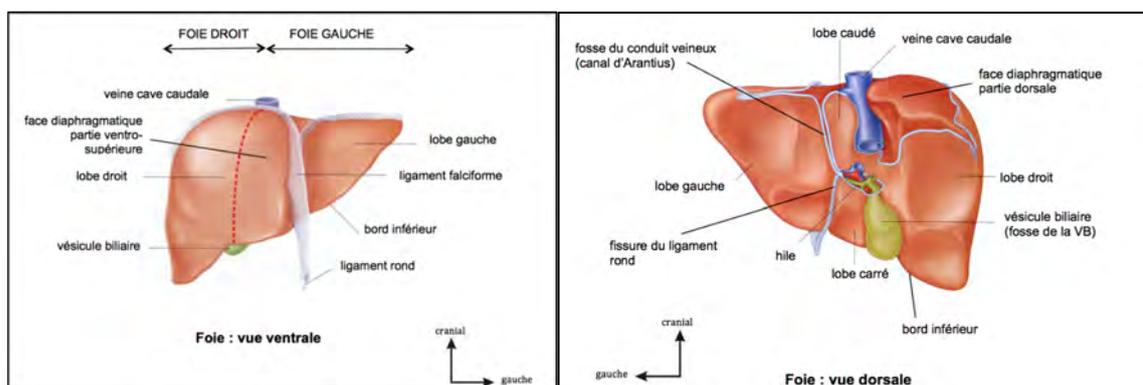


Schéma 1 : Anatomie du foie en vue ventrale

Schéma 2 : Anatomie du foie en vue dorsale

Le pédicule hépatique (Schéma 3) se trouve entre le hile du foie en haut et le bord supérieur du duodénum en bas. Les éléments qui arrivent au foie sont la veine porte qui se divise avant le hile en deux branches terminales, et l'artère hépatique propre qui vient de l'artère hépatique commune depuis le tronc coeliaque. Elle va se diviser en deux branches terminales et chemine en avant et à gauche de la veine porte. Les éléments qui sortent du foie sont les voies biliaires pour excréter la bile. Il y a les voies biliaires intra-hépatiques qui se résument à deux canaux hépatiques, droit et gauche, au départ des voies biliaires extra-hépatiques. Ces deux conduits sortent au niveau du hile et se réunissent pour former le canal hépatique commun qui descend en avant et à droite de la veine porte. Le canal hépatique commun s'unit avec le canal cystique qui vient de la vésicule biliaire. Elle accumule la bile entre les repas et la chasse vers le tube digestif pour la dégradation des aliments. Cette union entre les canaux cystique et hépatique commun forme le canal cholédoque qui se dirige vers le bord interne du deuxième duodénum en passant derrière le premier duodénum et derrière la tête du pancréas pour y entrer à sa terminaison.

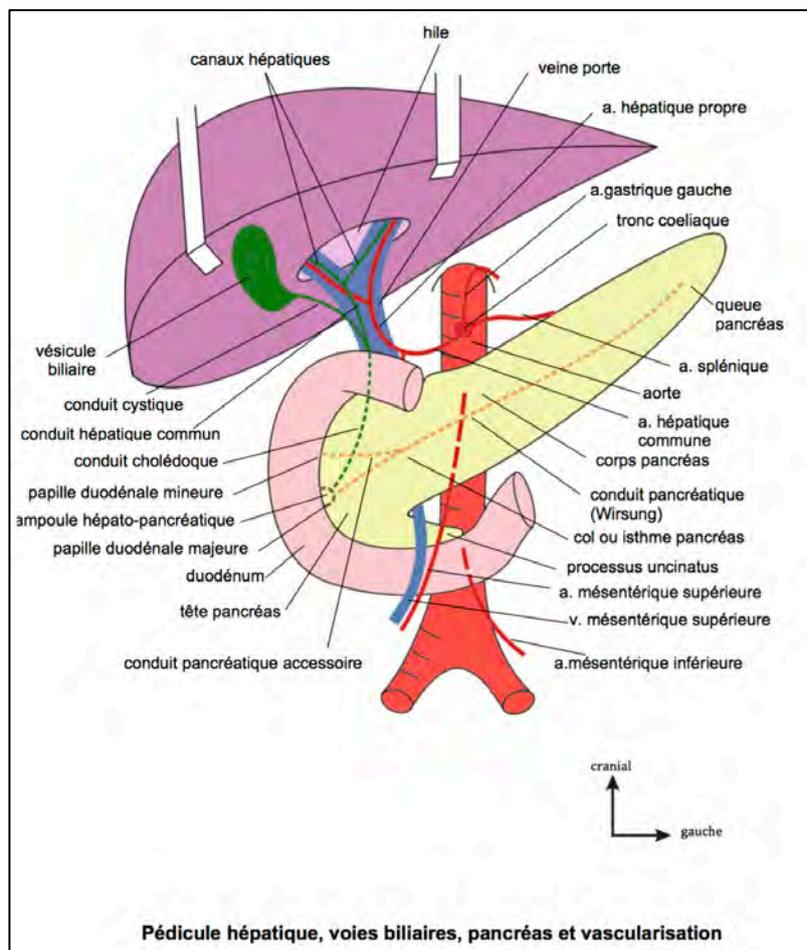


Schéma 3 : Anatomie du pédicule hépatique, voies biliaires et pancréas

## **II. La bilirubine**

Les hématies ont une durée de vie d'une centaine de jours, suite à quoi ils sont détruits. C'est l'hémolyse. Ils sont ingérés par les macrophages dans les vaisseaux de la moelle osseuse, de la rate et du foie. L'hème ainsi libéré subit un catabolisme hépatique ou dégradation enzymatique, entraînant la production de bilirubine. Ce pigment jaune-brun est normalement éliminé par la bile et presque absent du plasma. On différencie la bilirubine conjuguée dans le foie, de la bilirubine non conjuguée ou libre dans le plasma. Cette forme native libre est toxique et insoluble dans l'eau. Elle est transportée jusqu'au foie grâce à l'albumine. Dans le foie, elle est conjuguée à l'acide glucuronique, étape obligatoire afin de permettre son transport dans la bile en raison de son insolubilité. La majeure partie de la bilirubine est excrétée dans la bile sous forme conjuguée. Elle sera partiellement filtrée par le rein mais une partie est recaptée par le foie et secrétée dans la bile, donc dans l'intestin grêle où elle sera dégradée en stercobiline, pigment brun donnant la couleur aux matières fécales (14).

## **III. L'Atrésie des Voies Biliaires et sa prise en charge**

L'Atrésie des Voies Biliaires (AVB) est une maladie rare qui touche environ 1/20 000 naissances vivantes. C'est une maladie congénitale faisant probablement suite à une inflammation et à une fibrose progressive des voies intra et extra-hépatiques avec un mauvais pronostic de survie (2 ans) en l'absence de prise en charge. On parle de cholangiopathie oblitérante inflammatoire destructrice. Par cholangiopathie, on entend toute atteinte des voies biliaires. La cause de la réponse inflammatoire est inconnue. Plusieurs microorganismes infectieux sont impliqués, dont le réovirus de type 3 et le cytomégalovirus, mais aucune association certaine n'est notée. En outre, il peut y avoir une cause génétique avec des mutations des gènes CFC1 et FOXA2 (15).

Les signes cliniques sont multiples et surviennent généralement plusieurs semaines ou mois après la naissance : ictère sévère, hépatosplénomégalie, prurit, exanthème, retard de croissance, hypertension portale, saignements, ostéomalacie, ascite et insuffisance hépatique (4).

La bilirubine qui ne peut alors être sécrétée de façon physiologique diffuse dans le sang. On parle d'hyperbilirubinémie quand la concentration de bilirubine dans le sérum dépasse 1,5 mg/dL, soit 21  $\mu\text{mol/L}$ . L'ictère est cliniquement visible quand la concentration dépasse

les 7 mg/dL de sérum. Chez le sujet sain, la bilirubine plasmatique est essentiellement non conjuguée et son taux varie entre 0,3 et 1,0 mg/dL, soit 5,1 à 17,1  $\mu\text{mol/L}$  (6,9).

Aucun processus pathologique analogue n'existe chez les enfants plus âgés ou les adultes. Si elle n'est pas traitée, la cirrhose hépatique progressive pouvant débiter dès le deuxième mois de vie entraîne la mort à l'âge de 2 ans.

La maladie est classée en fonction du niveau de l'obstruction biliaire la plus proximale. Le type 1 (environ 5% des cas) a une perméabilité luminale jusqu'au canal cholédoque. Le type 2 (environ 2%) a une perméabilité jusqu'au niveau du canal hépatique commun. Et le type 3 (>90%), où la partie la plus proximale de la voie biliaire extra-hépatique dans le porta hepatis (hile du foie) est entièrement solide. Néanmoins, même dans ces cas de type 3, on trouve des canaux biliaires résiduels microscopiques qui conservent la continuité avec le système biliaire intra-hépatique. Il existe donc un score en fonction du degré de sévérité de l'AVB.

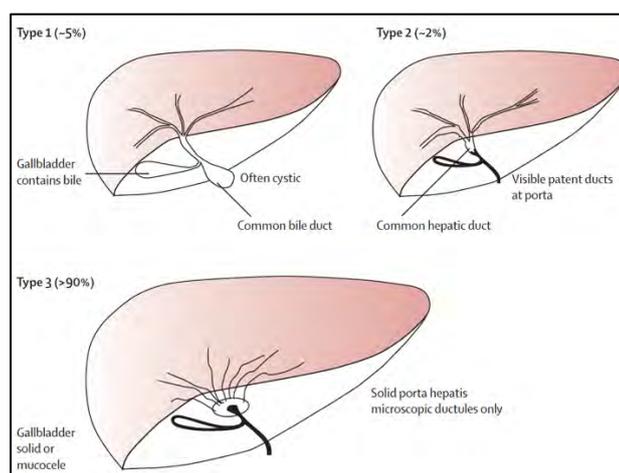


Schéma 4 : Classification de l'Atrésie des Voies Biliaires (1)

L'hépto-porto-entérostomie de Kasai est une procédure chirurgicale palliative réalisée pour rétablir un drainage biliaire. La transplantation hépatique est indiquée en cas d'échec de Kasai et l'AVB reste l'indication la plus fréquente de transplantation hépatique chez l'enfant, représentant environ 75% des transplantations chez les enfants âgés de moins de 2 ans (*Registre européen des transplantations hépatiques 2005*).

Concernant le diagnostic, le dépistage est indiqué si l'ictère est persistant au-delà de 14 jours après la naissance à terme, et au-delà de 21 jours en cas de naissance prématurée. Les symptômes sont : un ictère persistant, des selles pâles et des urines foncées. La technique utilisée consiste en une mesure de la fraction de bilirubine conjuguée. Les enfants atteints d'ictère physiologique (60% des nourrissons) ou dû au lait maternel (15%)

présentent des concentrations sériques accrues de bilirubine non conjuguée, tandis que la bilirubine conjuguée est élevée dans l'ictère secondaire à la plupart des formes de maladie hépatique. Notons que l'ictère physiologique ou lié à l'allaitement n'a généralement aucune conséquence et rentre dans l'ordre en quelques semaines. Une échographie maternelle prénatale avec des résultats anormaux montrant un kyste lié au hile hépatique, au canal biliaire ou au foie est observée chez environ 5% de tous les enfants atteints d'Atrésie des Voies Biliaires (atrésie biliaire kystique). Bien que ce résultat ne soit pas spécifique et qu'il indique souvent une malformation cholédocienne kystique ou un kyste parenchymateux du foie, il justifie une évaluation post-natale approfondie.

Un diagnostic précoce est essentiel et par conséquent, l'examen des nourrissons présentant une hyperbilirubinémie conjuguée est conçu pour identifier une AVB et exclure d'autres causes. La cholestase hépatique est évaluée par dosage de la bilirubine libre et conjuguée, des gamma-glutamyl-transférases (GGT) et des phosphatases alcalines. Les GGT sont généralement plus élevées en cas d'Atrésie des Voies Biliaires que dans les autres causes de cholestase néonatale, en particulier lorsqu'elle est corrélée à l'âge (1).

#### IV. Détails sur l'intervention de Kasai

L'hépto-porto-entérostomie décrite pour la première fois par le chirurgien japonais Morio Kasai dans les années 1950 peut permettre d'éliminer complètement l'ictère, de restaurer les fonctions d'excrétion et de synthèse du foie, et d'avoir une croissance et un développement sains, bien que ce résultat ne soit ni certain ni prévisible. Dans cette intervention, l'ensemble de l'arbre biliaire extra-hépatique est excisé de manière à ce que le hile hépatique soit sectionné au niveau de la capsule hépatique et que les canaux restants, généralement microscopiques, soient exposés. Une anse jéjunale dite de Roux est anastomosée à la surface de coupe, complétant ainsi la reconstruction.

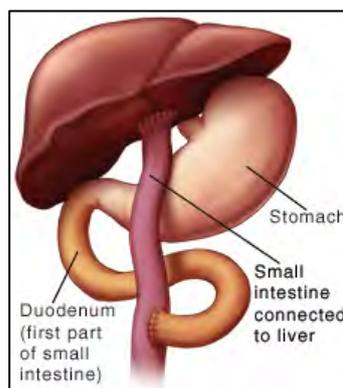


Schéma 5 : Intervention de Kasai

Le succès de l'intervention de Kasai est mesuré par la disparition de l'ictère et se définit comme l'obtention d'une concentration normale de bilirubine dans les 6 mois suivants. Plusieurs facteurs influencent le succès de cette chirurgie, notamment l'âge au moment de l'intervention, l'étendue des lésions hépatiques et l'expérience du centre dans lequel l'intervention est pratiquée (1).

Le risque de lésions hépatiques et l'évolution en cirrhose s'aggravent avec une obstruction hépatique prolongée. Ce principe a donc suscité une campagne publique et professionnelle pour encourager la prise en charge précoce de l'AVB et attirer l'attention sur la nécessité du dépistage (16,17).

La prise en charge de l'obstruction mécanique n'est qu'un des facteurs qui contribuent à une issue favorable, car les processus inflammatoires intra-hépatiques se poursuivent pendant au moins 6 mois après l'intervention de Kasai (18). Ce processus pourrait expliquer pourquoi certains nourrissons qui bénéficient d'une restauration initiale du flux biliaire développent ensuite une fibrose progressive et une cirrhose (19,20).

Une centralisation des données par le ministère britannique de la santé a montré que l'ictère était éliminé dans 57% des cas après hépato-porto-entérostomie de Kasai, avec une survie à 4 ans avec le foie natif de 51%, et une survie globale de 89% (21). L'avantage de l'expérience chirurgicale a été reconfirmé dans une étude nationale française dans laquelle une stratégie de collaboration entre plusieurs centres a été adoptée plutôt qu'une centralisation dans un très petit nombre de centres (22,23). On note alors une survie du foie natif à 4 ans plus faible (42%) qu'au Royaume-Uni, mais peu de changement dans la survie globale (87%) par rapport au Royaume-Uni sur une période similaire. L'intervention permet à 22% des enfants atteints d'Atrésie des Voies Biliaires de survivre jusqu'à 30 ans avec leur foie natif. L'impact des facteurs pronostiques, notamment celui lié de l'âge à l'intervention se poursuit jusqu'à l'âge adulte. La mortalité sans transplantation est stable depuis 1997 (8%) malgré la diffusion des techniques telles que le foie partagé et la greffe à donneur vivant. L'amélioration continue des résultats est principalement due aux meilleurs résultats de transplantation hépatique (24).

L'intervention de Kasai est une procédure palliative qui ne guérit pas l'Atrésie des Voies Biliaires. La maladie évolue chez 70% des enfants qui ont un drainage biliaire rétabli, avec le développement d'une fibrose, d'une hypertension portale et à terme d'une cirrhose. Malgré cela, plus de 80% de ceux qui ont subi une intervention réussie survivent plus de 10 ans avec leur foie natif avec une bonne qualité de vie (25).

## V. Les conséquences de la maladie sur les tissus bucco-dentaires

Lors de l'hyperbilirubinémie (HBR), les cristaux de bilirubine se déposent sur les différents tissus du corps, les os et les dents. Les tissus mous sont moins touchés car leur renouvellement cellulaire est plus rapide. On peut cependant parfois observer une pigmentation de la lèvre inférieure. La bilirubine reste définitivement piégée dans les tissus dentaires minéralisés car ils perdent leur activité métabolique après leur maturation, conduisant à une dyschromie dentaire qui peut aller du jaune à des nuances de vert foncé. D'autres manifestations orales peuvent être retrouvées comme des degrés variables de retard de développement osseux et dentaire, une hyperplasie gingivale, une hypoplasie de l'émail et une susceptibilité accrue aux caries (2).

L'étendue de l'atteinte dentaire est le reflet de la période d'HBR avec les dyschromies les plus sévères sur les dents les plus précocement formées. L'Atrésie des Voies Biliaires est la cause la plus fréquente de dents vertes (*green teeth*) due à l'HBR mais les tissus dentaires formés après la guérison peuvent être normaux. Cependant, il y aura une bande verte profondément colorée dans la dentine qui sépare les parties pigmentées des parties non pigmentées. Histologiquement, on observe des bandes circulaires vertes parallèles aux lignes incrémentales de la dentine (2,9,26).

La pigmentation de la dentine pouvant aller du jaune au vert foncé est visible à travers l'émail qui laisse passer la lumière de par sa translucidité et peut être très difficile à masquer. Il existe plusieurs options de traitement comme la transillumination à la lumière UV pour casser les cristaux de bilirubine (Giunta et Tsamtsouris), l'éclaircissement en denture permanente, les restaurations composites en méthode directe, les facettes (composites ou céramiques) et les couronnes, du moins au plus délabrant (7,9). Chambers et collaborateurs proposent une prise en charge esthétique avec des facettes en résine composite de laboratoire ne nécessitant pas de préparation des dents et suffisamment opaques pour masquer la dyschromie (6).

Lors des soins chez ces enfants, on peut retrouver un saignement majoré, une incapacité à métaboliser l'anesthésie, un risque augmenté de caries associé au besoin fréquent de manger pour compenser une faible absorption intestinale des nutriments. En raison des immunosuppresseurs, il existe un risque accru d'infections nécessitant une couverture antibiotique pour les actes invasifs, un risque de retard de croissance et d'hyperplasie gingivale. Il faut suivre ces enfants et prévenir les parents du risque de dyschromies sur les

dents de lait et définitives car la demande esthétique devient de plus en plus importante lorsque l'enfant grandit et se rapproche de l'âge adulte avec l'estime de soi et l'intégration sociale qui l'accompagnent (2).

L'hypoplasie de l'émail parfois rencontrée peut être causée par des modifications de la matrice organique de l'émail en développement résultant de perturbations métaboliques, mais il est plus probable qu'elle soit liée aux effets de l'ostéopénie et à d'autres perturbations du métabolisme du calcium et du phosphate rencontrées dans les maladies chroniques du foie. Il apparaît que l'hypoplasie de l'émail pourrait aussi être liée à une intubation en période néonatale (6,27).

Sur la cinquantaine de cas rapportés dans la littérature, le genre est précisé dans 39 cas, soit 20 filles et 19 garçons ce qui suggère une absence de susceptibilité liée au sexe. Dans ces observations, les dents de laits sont plus souvent touchées mais cela n'exclut pas les dents permanentes.

La pigmentation est toujours plus claire quand les dents font leur éruption et s'atténue quand les enfants grandissent ce qui pourrait s'expliquer par une diminution de la translucidité de l'émail avec l'âge, qui laisse donc moins passer la teinte verte de la dentine.

Il existe de nombreux facteurs pathologiques pouvant entraîner des dyschromies dentaires mais l'Atrésie des Voies Biliaires est un des seuls cas où il existe une réelle corrélation entre la sévérité de la maladie et la dyschromie (9,10,26,28–31). La bilirubine a donc bien été identifiée comme élément causal dans ces dyschromies (27,32). Des analyses directes confirment que les pigments ne sont observés que dans la dentine, jamais dans l'émail qui transmet la couleur verte de la dentine sous-jacente. Des études histologiques en stéréomicroscopie ont montré avec des séries de coupes de 2mm que l'émail est sain, que seule la dentine est atteinte et que l'orientation des tubulis dentinaires est modifiée dans la dentine pigmentée (5,10).

Le diagnostic de la pigmentation à la bilirubine doit être basé sur l'anamnèse et fait plus souvent le lien entre un antécédent d'ictère associé à une dyschromie (*green teeth*) et moins à une hypoplasie de l'émail. Les diagnostics différentiels sont les dyschromies externes liées à des bactéries ou des médicaments, et les dyschromies internes liées à une dentinogenèse imparfaite, une amélogenèse imparfaite ou l'ingestion de tétracyclines (9).

Les manifestations orales de ces patients sont peu rapportées mais parmi elles, on trouve l'hypoplasie de l'émail, une éruption dentaire retardée, et des dents vertes. Au niveau systémique, les maladies hémolytiques, l'insuffisance hépatique aigüe, et l'hypoplasie biliaire sont aussi des causes de dents vertes.

L'utilisation de la ciclosporine A comme immunosuppresseur est notamment responsable de l'hyperplasie gingivale, mais d'autres facteurs jouent aussi sur la gencive comme la plaque, l'inflammation gingivale, le dosage des médicaments, la quantité de médicaments dans le sang et la durée d'administration du médicament. Un contrôle de plaque irréprochable associé à une chirurgie parodontale, si nécessaire, est le traitement de choix pour réduire l'hyperplasie gingivale. Des études récentes ont montré que l'utilisation du Tacrolimus plutôt que de la ciclosporine A, associé à un contrôle de plaque parfait permettent de réduire voire de supprimer l'hyperplasie gingivale chez ces patients transplantés (33–37).

Un traitement immunosuppresseur à base de Tacrolimus ou de ciclosporine peut aussi entraîner la présence de taches hyperpigmentées typiques sur le bord des gencives, sur les faces internes des joues et sur les surfaces des lèvres (38).

Les enfants malades n'ont pas tous les dents vertes. Cela dépend des proportions de bilirubine conjuguée et non conjuguée. Si la version non conjuguée est supérieure à la conjuguée, l'enfant aura probablement les dents vertes (6,29). Il semble notamment que lorsque la concentration de bilirubine conjuguée est supérieure à 100  $\mu\text{mol/L}$  (5,9 mg/dL) et que celle de bilirubine non conjuguée est supérieure à 30 mg/dL, la dyschromie soit inévitable (1,5,10).

Il faut considérer que seule la minéralisation de la dentine est affectée par la bilirubine pour proposer un plan de traitement adapté. L'éclaircissement externe a très peu de chances d'être efficace à lui seul.

Il existe des dyschromies intrinsèques liées à divers facteurs systémiques et des dyschromies extrinsèques liées à l'environnement (nourriture, médicaments, infections). Les dyschromies internes sont associées à des modifications chimiques de la structure de la dent et ne peuvent pas être éliminées sans changer la structure de cette dent, c'est le cas retrouvé dans l'HBR. Bien que la morphologie dentaire ne soit pas impactée, la doléance esthétique est importante.

## VI. Le principe de l'éclaircissement externe et problème lié à la réglementation

Les dyschromies sont causées par la présence de pigments ou de chromophores piégées dans les tissus dentaires. Un chromophore correspond à l'ensemble des atomes reliés par des doubles liaisons et responsables de la couleur d'une molécule. L'éclaircissement externe est obtenu grâce à une réaction d'oxydo-réduction entre la molécule chromogène et la molécule décolorante. Le principe actif est appliqué de manière prolongée au contact de la dent pour permettre sa diffusion au travers des différentes couches. Il va ainsi oxyder les pigments responsables de la coloration. On recherche à travers ce phénomène, la rupture ces cycles aromatiques présents dans les molécules colorées. Dans notre prise en charge au CHU de Toulouse, nous utilisons le peroxyde de carbamide qui est aujourd'hui le produit éclaircissant le plus utilisé sur dents pulpées. Ce composé chimique peut aussi être qualifié de peroxyde d'urée puisqu'il est constitué d'une molécule de peroxyde d'hydrogène de formule  $H_2O_2$  associée à une molécule d'urée de formule  $CO(NH_2)_2$ . Au contact de la salive, il se transforme en urée et en peroxyde d'hydrogène selon la réaction suivante  $CO(NH_2)_2 \cdot H_2O_2 \rightarrow CO(NH_2)_2 + H_2O_2$ . Le peroxyde d'hydrogène se décompose ensuite et libère des ions oxydants qui vont réagir avec les molécules pigmentées par oxydo-réduction pour les décolorer par dégradation des doubles liaisons et modification de leurs propriétés d'absorption de la lumière (39–42).

La littérature s'accorde à dire que le changement de perception de la couleur de la dent est lié à trois phénomènes (43–45) : la diffusion du peroxyde d'hydrogène à travers les tissus dentaires, une interaction chimique entre le peroxyde d'hydrogène et les chromophores (détaillée précédemment), et enfin une opacification de l'émail.

L'émail et la dentine étant très perméables aux fluides, le peroxyde d'hydrogène diffuse facilement dans la dent jusqu'à la cavité pulpaire. On considère qu'il atteint le complexe pulpaire en une quinzaine de minutes (46,47). Le temps de contact est un élément influençant fortement la diffusion du produit. Cette dernière est clairement améliorée lorsqu'il augmente (43,44,48).

Enfin, l'opacification de l'émail est à prendre en compte. Selon une étude récente de Ma et al. (49), il est mis en évidence que le changement de couleur de l'émail est plus important que celui de la dentine lors de l'éclaircissement. On peut donc penser que le changement de couleur de la dent est majoritairement lié à celui de l'émail. La transmission lumineuse

de ce tissu est aussi beaucoup diminuée et sa participation dans le changement colorimétrique est plus importante que celle de la dentine. Après 28 jours de traitement, la dentine reste assez jaune alors que la proportion de jaune dans l'émail diminue nettement.

L'émail semble donc largement impliqué dans l'éclaircissement dentaire, notamment car il est en contact direct avec le produit qui arrive probablement en quantité moindre au niveau de la dentine. Mais aussi parce que sa translucidité diminuant, son opacité augmentant, la majeure partie de la lumière réfléchie provient de l'émail et non de la dentine. Cette diminution de translucidité observée reste cependant difficile à expliquer. Les changements optiques d'une dent éclaircie sont donc liés au changement de spectre d'absorption de la lumière suite à une réaction d'oxydo-réduction et à une baisse de la translucidité de l'émail. La lumière renvoyée par une dent éclaircie provient majoritairement de l'émail. La teinte finale est ainsi essentiellement due à celui-ci, alors que sur une dent naturelle la couleur provient majoritairement de la dentine.

Le problème majeur lié à la réglementation dans le cadre de ce travail est le fait que l'éclaircissement dentaire soit interdit chez le patient mineur (<18 ans). Il s'agit d'une contre-indication juridique alors que les dyschromies dentaires, notamment lorsqu'elles sont liées à une pathologie, peuvent représenter un réel handicap social (11,12). On suppose que les risques de l'éclaircissement chez l'enfant sont faibles voire nuls puisque dans les dents immatures ou jeunes, on retrouve des chambres pulpaire élargies associées à une importante vascularisation. À ce jour, aucune lésion pulpaire liée à un traitement d'éclaircissement n'a été rapporté dans la littérature (50,51).

Un protocole allégé par rapport au protocole adulte pourrait être proposé avec l'utilisation d'une concentration de peroxyde de carbamide minimale (10%), une démonstration au fauteuil en présence des parents en leur demandant de contrôler le protocole, le port d'une gouttière limité à une heure par jour, une limitation aux dents antérieures visibles, et un contrôle à 15 jours après le début du traitement (11).

Il faudra désormais attendre la modification de la directive européenne interdisant les éclaircissements chez les moins de 18 ans (directive du Conseil 2011/84/UE du 20 septembre 2011) pour pouvoir proposer ce type de prise en charge à nos patients atteints de dyschromie associée à leur maladie hépatique.

Courrier adressé aux patients en vue d'obtenir leur consentement pour participer à  
l'étude

« Madame, Monsieur,

Vous êtes atteint(e) de l'Atrésie des Voies Biliaires. Cette maladie peut être à l'origine d'une anomalie de la couleur de vos dents (dyschromie) qui peut parfois être gênante.

L'Assurance Maladie considère que le traitement de cette anomalie dentaire relève de soins esthétiques et n'apporte à ce jour aucune prise en charge.

Nous menons actuellement une enquête sur le retentissement de cette dyschromie dentaire sur votre vie quotidienne et sur vos attentes d'une prise en charge spécialisée.

Cette enquête est menée par le service de chirurgie dentaire du CHU de Toulouse en accord avec les médecins qui vous suivent habituellement (Dr P. BROUE et Dr K. BARANGE).

Les objectifs de ce travail sont :

- de décrire ces anomalies et d'évaluer le retentissement parfois important qu'elles génèrent (peu de données actuellement publiées),
- de constituer une base de discussion avec l'Assurance Maladie pour aboutir à une prise en charge financière des soins pour les corriger.

Vous serez prochainement contacté(e) par téléphone pour vous inviter à participer à cette enquête représentée par un entretien téléphonique ou présentiel. Ce dernier sera enregistré au dictaphone et les données seront anonymisées.

Vous êtes parfaitement libre de participer ou non à cette enquête sans que cela n'affecte à aucun moment la qualité des soins médicaux prodigués lors des prochaines consultations médicales.

Nous vous remercions pour le temps que vous avez consacré à la lecture de ce document.

Bien à vous. »

## BIBLIOGRAPHIE

1. Hartley JL, Davenport M, Kelly DA. Biliary atresia. *The Lancet*. nov 2009;374(9702):1704-13.
2. Sommer S, Magagnin K, Kramer P, Tovo M, Bervian J. Green Teeth Associated with Neonatal Hyperbilirubinemia Caused by Biliary Atresia: Review and Case Report. *J Clin Pediatr Dent*. 1 déc 2010;35(2):199-202.
3. Cochran WJ, Clinic G. Revue générale des anomalies gastro-intestinales congénitales. :2.
4. Rangé H, Camy S, Cohen J, Colon P, Bouchard P. Dental treatment of an adult patient with a history of biliary atresia. *Quintessence Int Berl Ger* 1985. avr 2012;43(4):337-41.
5. Rakauskaite A, Juodzbaly G, Pauza D, Cicciù M. Green Pigmentation in Human Teeth. A Stereomicroscopic Study. *J Clin Pediatr Dent*. 1 juill 2014;38(4):355-61.
6. Chambers CP, O'Morain D, Keightley A, Welbury RR. A Case Report of Green Pigmentation in the Permanent Dentition. *J Dent Child (Chic)*; 2012.
7. Barbério G, Zingra A, Santos P, Machado M. Green Teeth Related to Bilirubin Levels. *Acta Stomatol Croat*. 15 mars 2018;52(1):61-4.
8. Karl Barange, Pierre Broué. Modalités pratiques et conditions de la consultation de transition. 2013;29-34.
9. Guimarães LP, Silva TA. Green teeth associated with cholestasis caused by sepsis: A case report and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endodontology*. avr 2003;95(4):446-51.
10. Amaral THA do, Guerra C de S, Bombonato-Prado KF, Garcia de Paula e Silva FW, De Queiroz AM. Tooth pigmentation caused by bilirubin: a case report and histological evaluation. *Spec Care Dentist*. 23 oct 2008;28(6):254-7.
11. Haywood VB. The "Bottom Line" on Bleaching 2008. 2008;5.
12. Haywood, V. B. Bleaching children's teeth : questions and answers. 2006;4-7.
13. Dr. Moscovici. Anatomie de l'appareil digestif. 2016.
14. Gartner LM, Arias IM. Formation, Transport, Metabolism and Excretion of Bilirubin. *N Engl J Med*. 12 juin 1969;280(24):1339-45.
15. Harpavat S, Garcia-Prats JA, Anaya C, Brandt ML, Lupo PJ, Finegold MJ, et al. Diagnostic Yield of Newborn Screening for Biliary Atresia Using Direct or Conjugated Bilirubin Measurements. *JAMA*. 24 mars 2020;323(12):1141.

16. Powell JE, Keffler S, Kelly DA, Green A. Population Screening for Neonatal Liver Disease: Potential for a Community-Based Programme. *J Med Screen*. 2003;10(3):5.
17. Hsiao CH, Chang MH, Chen HL, Lee HC, Wu TC, Lin CC, et al. Universal screening for biliary atresia using an infant stool color card in Taiwan. *Hepatology*. 20 déc 2007;47(4):1233-40.
18. Shen C, Zheng S, Wang W, Xiao XM. Relationship between prognosis of biliary atresia and infection of cytomegalovirus. *World J Pediatr*. mai 2008;4(2):123-6.
19. Narayanaswamy B, Gonde C, Tredger JM, Hussain M, Vergani D, Davenport M. Serial circulating markers of inflammation in biliary atresia—Evolution of the post-operative inflammatory process. *Hepatology*. juill 2007;46(1):180-7.
20. Mack CL, Falta MT, Sullivan AK, Karrer F, Sokol RJ, Freed BM, et al. Oligoclonal Expansions of CD4+ and CD8+ T-Cells in the Target Organ of Patients With Biliary Atresia. *Gastroenterology*. juill 2007;133(1):278-87.
21. Davenport M, De Ville de Goyet J, Stringer M, Mieli-Vergani G, Kelly D, McClean P, et al. Seamless management of biliary atresia in England and Wales (1999–2002). *The Lancet*. avr 2004;363(9418):1354-7.
22. Chardot C, Carton M, Spire-Bendelac N, Le Pommelet C, Golmard JL, Auvert B. Prognosis of biliary atresia in the era of liver transplantation: French national study from 1986 to 1996. *Hepatology*. sept 1999;30(3):606-11.
23. Serinet MO, Broué P, Jacquemin E, Lachaux A, Sarles J, Gottrand F, et al. Management of patients with biliary atresia in France: Results of a decentralized policy 1986-2002. *Hepatology*. juill 2006;44(1):75-84.
24. Fanna M, Masson G, Capito C, Girard M, Guerin F, Hermeziu B, et al. Management of Biliary Atresia in France 1986 to 2015: Long-term Results. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. oct 2019;69(4):416-24.
25. Kuroda T, Saeki M, Morikawa N, Fuchimoto Y. Biliary atresia and pregnancy: puberty may be an important point for predicting the outcome. *J Pediatr Surg*. déc 2005;40(12):1852-5.
26. Watanabe K, Shibata T, Kurosawa T, Morisaki I, Kinehara M, Igarashi S, et al. Bilirubin pigmentation of human teeth caused by hyperbilirubinemia. *J Oral Pathol Med*. 27 févr 2007;28(3):128-30.
27. de Oliveira Melo NSF, Regina Paula Guimarães Vieira Cavalcante da Silva, de Lima AAS. Green teeth resulting from neonatal hyperbilirubinemia: Report of a case. *Pediatr*

Pol. mars 2015;90(2):155-60.

28. Tjon A Ten WE, Houwen RHJ. Green teeth. Arch Dis Child. 1 mars 2007;92(3):250-250.
29. Busuttill Naudi A, Ammari A, Fung D. A report of 2 cases of green pigmentation in the primary dentition associated with cholestasis caused by sepsis. J Dent Child Chic Ill. 1 janv 2008;75:91-4.
30. Ball S. Pigmentation of the Primary Dentition: Pathogenesis and Diagnostic Implications. :11.
31. Göhring TN, Besek MJ, Schmidlin PR. Attritional wear and abrasive surface alterations of composite resin materials in vitro. J Dent. févr 2002;30(2-3):119-27.
32. Shibata T, Watanabe K, Oda H, Arisue M, Kurosawa T, Tohma M, et al. Experimental bilirubin pigmentation of rat dentine and its detection by a qualitative analytical method. Arch Oral Biol. mai 1996;41(5):509-11.
33. Hernández G, Arriba L, Cruz Frías M, de la Macorra JC, de Vicente JC, Jiménez C, et al. Conversion from Cyclosporin A to Tacrolimus as a Non-Surgical Alternative to Reduce Gingival Enlargement: A Preliminary Case Series. J Periodontol. déc 2003;74(12):1816-23.
34. Hernández G, Arriba L, Lucas M, de Andrés A. Reduction of Severe Gingival Overgrowth in a Kidney Transplant Patient by Replacing Cyclosporin A With Tacrolimus. J Periodontol. oct 2000;71(10):1630-6.
35. James JA, Boomer S, Maxwell AP, Hull PS, Short CD, Campbell BA, et al. Reduction in gingival overgrowth associated with conversion from cyclosporin A to tacrolimus. J Clin Periodontol. févr 2000;27(2):144-8.
36. McKaig SJ, Kelly D, Shaw L. Investigation of the effect of FK506 (tacrolimus) and cyclosporin on gingival overgrowth following paediatric liver transplantation: Immunosuppression and gingival overgrowth. Int J Paediatr Dent. 11 déc 2002;12(6):398-403.
37. Wondimu B, Németh A, Modéer T. Oral BlackwellScienceLtd health in liver transplant children administered cyclosporin A or tacrolimus. Int J Paediatr Dent. 2001;6.
38. Bunetel L, Gall FL, Delaval Y, Sixou JL, Dabadie A, Bonnaure-Mallet M. An Unusual Oral Chronic Graft-Versus-Host Disease-Like Syndrome Following a Liver Transplant. J Periodontol. avr 2003;74(4):552-6.
39. Claisse A, Bonnet E, Claisse D. Blanchiment des dents pulpées et dépulpées. 2000;23-150-A-10:10p.

40. Faucher AJ, Pignoly C, Koubi S et coll. Les dyschromies dentaires : de l'éclaircissement aux facettes céramiques. 2001;VI-123p.
41. Carey CM. Tooth whitening: what we now know. 2014;14(Suppl):70-76.
42. Joiner A. Review of the effects of peroxide on enamel and dentine properties. J Dent. déc 2007;35(12):889-96.
43. Joshi, S. B. An overview of vital teeth bleaching. 2016;3-13.
44. Kwon, S. R. A dynamic process : elucidating the mechanism of tooth whitening. 2016;94.
45. Kwon SR, Wertz PW. Review of the Mechanism of Tooth Whitening: The Mechanism of Tooth Whitening. J Esthet Restor Dent. sept 2015;27(5):240-57.
46. Ubaldini ALM, Baesso ML, Medina Neto A, Sato F, Bento AC, Pascotto RC. Hydrogen Peroxide Diffusion Dynamics in Dental Tissues. J Dent Res. juill 2013;92(7):661-5.
47. Greenwall, Linda. Tooth whitening : the last 25 years. 2016;66-74.
48. Elfallah, H. M., et M. V. Swain. A review of the effect of vital teeth bleaching on the mechanical properties of tooth enamel. 2013;87-96.
49. Ma X, Li R, Sa Y, Liang S, Sun L, Jiang T, et al. Separate contribution of enamel and dentine to overall tooth colour change in tooth bleaching. J Dent. nov 2011;39(11):739-45.
50. Elhennawy K, Schwendicke F. Managing molar-incisor hypomineralization: A systematic review. J Dent. déc 2016;55:16-24.
51. Havwood VB, Leonard RH, Nelson CF, Brunson WD. Effectiveness, Side Effects and Long-Term Status of Nightguard Vital Bleaching. J Am Dent Assoc. sept 1994;125(9):1219-26.

## **LISTE DES ILLUSTRATIONS**

Photo 1 : Cas d'une patiente atteinte d'AVB et de dyschromie sévère, greffée à l'âge de 2 ans (photo prise au fauteuil dans le service d'odontologie de Toulouse)

Photo 2 : Résultat de 4 semaines d'éclaircissement externe

Photo 3 : Confection des gouttières à partir du wax-up numérique

Photo 4 : Injection du bloqueur en technique 1/2

Photo 5 : Bloqueur en place pour une dent sur deux

Photo 6 : Bloqueur en place de canine à canine

Photo 7 : Résultat après injection des composites

Photo 8 : Polissage des composites injectés après retrait des excès

Tableau 1 : Tableau regroupant les données des patients ayant accepté de participer à l'étude

Tableau 2 : Tableau des mots les plus fréquemment utilisés illustrant les thèmes abordés

Tableau 3 : Citations des patients (Pt.) illustrant les thèmes abordés

Figure 1 : Diagramme illustrant les codes comparés par nombre de références d'encodage

Figure 2 : Nuage des cent mots les plus utilisés lors des entretiens

Schéma 1 : Anatomie du foie en vue ventrale

Schéma 2 : Anatomie du foie en vue dorsale

Schéma 3 : Anatomie du pédicule hépatique, voies biliaires et pancréas

Schéma 4 : Classification de l'Atrésie des Voies Biliaires (1)

Schéma 5 : Intervention de Kasai

**IMPACTS DE L'ATRESIE DES VOIES BILIAIRES SUR L'ESTHETIQUE DU  
SOURIRE CHEZ LE SUJET JEUNE**

---

**RESUME EN FRANÇAIS :**

L'Atrésie des Voies Biliaires est une maladie congénitale rare du nouveau-né. La prise en charge chirurgicale dans les premiers mois de vie permet aux patients de vivre et de grandir normalement. Certains vont développer une dyschromie dentaire qui peut aller du jaune au vert foncé sur les dents de lait, comme sur les dents définitives. Dans cette étude, l'analyse thématique des entretiens avec les patients a mis en évidence le retentissement psychologique très important de cette atteinte du sourire ainsi que les impacts sur leur vie sociale et sur leur bien-être. À ce jour, il n'existe aucune couverture financière des soins esthétiques malgré les moyens techniques disponibles. Nul doute que ce travail permettra de reconnaître ce problème comme une conséquence et un continuum de la maladie pour conduire à une prise en charge adaptée.

---

**TITRE EN ANGLAIS :** Impacts of biliary tract atresia on the smile aesthetics in the young subject

---

**DISCIPLINE ADMINISTRATIVE :** Chirurgie dentaire

---

**MOTS-CLES :** atrésie des voies biliaires, esthétique, sourire, dents vertes, green teeth, analyse thématique, qualité de vie, complexe, prise en charge, remboursement, maladie rare

---

**INTITULE ET ADRESSE DE L'UFR OU DU LABORATOIRE :**

Université Toulouse III – Paul Sabatier  
Faculté de santé – Département d'Odontologie  
3 chemin des Maraîchers 31062 Toulouse Cedex 09

---

Directeur de thèse : Pr Frédéric VAYSSE