

UNIVERSITE TOULOUSE III – PAUL SABATIER

FACULTE DE SANTE – DEPARTEMENT D'ODONTOLOGIE

ANNEE 2023

2023 TOU3 3090

THESE

POUR LE DIPLOME D'ETAT DE DOCTEUR EN CHIRURGIE DENTAIRE

Présentée et soutenue

publiquement par

Pauline JEANNE

le 20 Octobre 2023

RECONSTRUCTION OSSEUSE CHEZ LES PATIENTS ATTEINTS D'AGÉNÉSIES DENTAIRES MULTIPLES AU SEIN DE L'UNITÉ DE CHIRURGIE ORALE ET RÉHABILITATION DU CHU DE TOULOUSE : ÉTUDE RETROSPECTIVE

Directrice de thèse : Dr VINEL Alexia

JURY

Président :	Pr Frédéric VAYSSE
1 ^{er} assesseur :	Pr Cathy NABET
2 ^{ème} assesseur :	Dr Alexia VINEL
3 ^{ème} assesseur :	Dr DUBUC Antoine





**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 : Mme Isabelle BAILLEUL-FORESTIER, M. Frédéric VAYSSE

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

Assistants : Mme Anne GICQUEL, M. Robin BENETAH

Adjointes d'Enseignement : M. Sébastien DOMINE, M. Mathieu TESTE, M. Daniel BANDON

ORTHOPEDIE DENTO-FACIALE

Maîtres de Conférences : M. Pascal BARON, M. Maxime ROTENBERG

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

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

Maîtres de Conférences : 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

Professeurs d'Université : Mme Sara LAURENCIN- DALICIEUX,

Mme Alexia VINEL, Mme. Charlotte THOMAS

Assistants : M. Joffrey DURAN, M. Antoine AL HALABI

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, M. Antoine DUBUC
Adjoints d'Enseignement : M. Gabriel FAUXPOINT, M. Arnaud L'HOMME, Mme Marie-Pierre LABADIE, M. Luc RAYNALDY,
M. Jérôme SALEFRANQUE,

BIOLOGIE ORALE

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

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. Ludovic PELLETIER, Mme Laura PASCALIN, M. Thibault DECAMPS
M. Nicolas ALAUX, M. Vincent SUAREZ, M. Lorris BOIVIN
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, M. Florent DESTRUHAUT,
Maîtres de Conférences : M. Antoine GALIBOURG,
Assistants : Mme Margaux BROUTIN, Mme Coralie BATAILLE, Mme Mathilde HOURSET, Mme Constance CUNY
M. Anthony LEBON
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. Victor EMONET-DENAND, M. Thierry DENIS, M. Thibault YAGUE,
M. Antonin HENNEQUIN, M. Bertrand CHAMPION

FONCTIONS-DYSFONCTIONS, IMAGERIE, BIOMATERIAUX

Professeur d'Université : Mr. Paul MONSARRAT
Maîtres de Conférences : Mme Sabine JONQOT, M. Karim NASR, M. Thibault CANCEILL, M. Julien DELRIEU
Assistants : M. Paul PAGES, M. Olivier DENY
Adjoints d'Enseignement : Mme Sylvie MAGNE, M. Thierry VERGÉ, M. Damien OSTROWSKI

Mise à jour pour le 01 Septembre 2023

Remerciements

A notre président du jury,

Monsieur le Professeur VAYSSE Frédéric

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

Il n'y aura jamais assez de remerciements pour vous, Professeur Vaysse. Pour votre gentillesse, votre bienveillance, et votre accompagnement tout au long de ces 3 années d'internat. Vous transmettez vos multiples connaissances sans compter le temps que vous passez avec l'ensemble des internes en médecine bucco-dentaire. Vous avez été sincèrement une rencontre qui aura marqué mon internat toulousain.

Aux membres du jury,

Madame la Professeur NABET Cathy

- Professeur des Universités, Praticien hospitalier d' Odontologie,
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Diplôme d' Etudes Approfondies de Santé Publique – Epidémiologie
- Docteur de l' Université Paris XI,
- Habilitation à Diriger des Recherches (HDR),
- Lauréate de la Faculté de Médecine,
- Lauréate de l' Université Paul Sabatier,
- Lauréate de l' Académie Nationale de Chirurgie Dentaire

Toujours un sourire à tout un chacun, merci pour votre gentillesse et bienveillance à toute épreuve. Vous avez été, lors de cette thèse d'une formidable aide pour nous dépêtrer d'un nombre incalculable de résultats à ne plus savoir qu'en faire. Merci infiniment.

A notre directrice de thèse,

Madame le Docteur VINEL Alexia

- Maître de Conférences des Universités, Praticien Hospitalier d' Odontologie,
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Lauréate de l' Université Paul Sabatier
- Docteur en sciences
- Diplôme d' Université de Recherche Clinique en Odontologie,
- Diplôme d' Université de Parodontologie,
- Diplôme d' Université de pédagogie en sciences de la santé

Merci beaucoup pour cet internat, pour ton soutien perpétuel et infailible auprès des internes en médecine bucco-dentaire. C'est une chance énorme de t'avoir non seulement comme coordinatrice locale pour notre spécialité à Toulouse, mais aussi de t'avoir comme directrice de thèse car ton expertise aura été précieuse tout au long de la rédaction de cette dernière.

Aux membres du jury,

Monsieur le Docteur DUBUC Antoine

- Chef de Clinique des Universités – Assistant des Hôpitaux
- Docteur en Chirurgie Dentaire,
- Spécialiste qualifié en Chirurgie Orale
- Master 2 : Sciences chirurgicales et nouvelles technologies
- Lauréat de l' université Paul Sabatier

Merci Antoine pour ton encadrement patient dans la vie professionnelle et ton amitié dans la vie personnelle. Tu me fais aujourd'hui l'honneur de siéger dans ce jury pour la soutenance de ma thèse. C'est une chance de te compter dans ma vie qui sera encore, je l'espère, ponctuée de nombreux sommets à gravir à tes côtés.

A ma famille, pour tout leur amour et leur soutien quotidien. Pour votre présence à mes côtés tout au long de mes études dans les réussites comme dans les moments plus difficiles. Vous avez toujours su me prendre dans vos bras quand il le fallait, il n'y aura jamais assez de mercis.

A mes chicologues préférés, mes fêtards invétérés, merci pour toutes ces belles années étudiantes passées à vos côtés à Clermont. Pour tous ces moments de retrouvailles qui me sont chers et qui ponctuent les années de joie et de bonheur.

A tous mes copains que j'aime Lou, Sonia, Salomé, Quentin, Pauline, Lara et Mathis, merci pour votre joie permanente, vos encouragements de chaque instant. De véritables trésors que je chéris passionnément.

A Quentin, Thibaut et Jessica (ma co-thésarde préférée), pour votre optimisme débordant. Vous avez été 3 piliers de mon internat par votre soutien et votre gentillesse sans faille. 3 praticiens, qui par leur bienveillance et leur professionnalisme, feront des merveilles dans notre art dentaire.

A mes cointernes, actuels et des années supérieures pour votre présence quotidienne dans le service. Des petites bulles de bonheur allégeant grandement cet internat par votre humour et vos sourires constants.

A mes colocataires, Lucie, Pépé, Jeff et Thomas, ces 4 petits soleils illuminant le Kennedy dès que l'on franchit le seuil de la porte.

À Étienne, pour m'avoir accompagnée, soutenue et supportée tout au long de ce périple, tout au long de cet internat. Tes encouragements, ta confiance, ton humour et ton amour sont de véritables petits moteurs dans ma vie quotidienne.

TABLE DES MATIERES

LISTE DES ABREVIATIONS	11
INTRODUCTION	12
PARTIE 1	13
1. CONTEXTE ET JUSTIFICATION DE L'ÉTUDE	13
1.1. DEFINITION ET PREVALENCE DES AGENESIES DENTAIRES.....	13
1.2. ÉTIOLOGIES DES AGENESIES DENTAIRES.....	14
1.3. ANOMALIES BUCCO-DENTAIRES ASSOCIEES AUX AGENESIES DENTAIRES.....	16
1.4. DIAGNOSTIC ET PRISE EN CHARGE.....	17
1.5. AMENAGEMENTS OSSEUX PRE-IMPLANTAIRES.....	19
2. OBJECTIFS DE L'ÉTUDE	20
PARTIE 2	20
1. MATERIEL ET METHODE	20
1.1. CONCEPTION DE L'ÉTUDE	20
1.2. OBJECTIFS ET CRITERES DE JUGEMENTS.....	21
1.3. POPULATION	21
1.3.1 <i>Modalité de recrutements</i>	21
1.3.2 <i>Critères d'éligibilités</i>	21
1.3.3 <i>Population retenue</i>	22
1.4. COLLECTE DES DONNEES	24
1.5. PROTOCOLE DE SEGMENTATION ET CALCUL DE VOLUMES OSSEUX :	24
1.5.1. MISE EN EVIDENCE DE REPERES ANATOMIQUES SUR FICHIERS DICOM.....	25
1.5.2. SEGMENTATION AVEC LE LOGICIEL 3D SLICER.....	26
1.6. ÉVALUATION DU GAIN DE VOLUME OSSEUX.....	30
1.7. METHODOLOGIE DE L'ÉTUDE	30
2. RESULTATS.....	31
2.1. CARACTERISTIQUES DE LA POPULATION ETUDIEE	31
2.2. CARACTERISTIQUES DES SITES ETUDIES AVANT RECONSTRUCTION OSSEUSE.....	34
2.3. CARACTERISTIQUES DES SITES ETUDIES APRES LA PREMIERE RECONSTRUCTION OSSEUSE.....	38
2.4. GAIN OSSEUX OBTENU POUR CHAQUE SITE	42
2.5. PERTE OSSEUSE DE CERTAINS SITES.....	42
3. DISCUSSION	45
CONCLUSION	50

ANNEXE	51
1. ANNEXE 1 : DOSSIER ALD 31 ET FORMULAIRE D'AIDE AU REMPLISSAGE.....	51
2. ANNEXE 2 : COORDONNEES DES CENTRES DE REFERENCES ET DE COMPETENCES EN MALADIES RARES :	51
3. ANNEXE 3 : PROCEDURE DE REHABILITATION DANS LES AGENESIES DENTAIRES MULTIPLES (CRMV).....	54
4. ANNEXE 4 : LISTE DES GENES DU PANEL GENODENT :	55
FIGURES.....	56
TABLEAUX	58
BIBLIOGRAPHIE.....	59

Liste des abréviations

ALD : Affection de longue durée

CBCT : *Cone Beam Computer Tomography*

CCMR : Centre de Compétence Maladies Rares

CRMR : Centre de Référence en Maladies Rares

CHU : Centre Hospitalier Universitaire

DICOM: *Digital Imaging and Communication in Medicine*

GO : Greffe osseuse

MEC : Mise en charge

ODF : Orthopédie dento-faciale

OP : Odontologie pédiatrique

PNDS : Protocole National de diagnostics et de soins

RCP : Réunion de concertation pluridisciplinaire

ROG : Régénération osseuse guidée

UCOR : Unité de chirurgie orale et réhabilitation

VOI : *Volume of Interest*

VOF : Volume osseux final

Introduction

L'agénésie dentaire est une anomalie caractérisée par l'absence de développement d'un ou plusieurs germes dentaires, entraînant un défaut de nombre de dents. Il s'agit de l'anomalie dentaire la plus fréquente, sa prévalence étant de 1,6% à 9,6% [1][2]. Elle affecte aussi bien le maxillaire que la mandibule et peut être symétrique ou non.

Les patients, impactés fonctionnellement et esthétiquement, représentent un véritable défi de réhabilitation. En effet, l'absence de croissance dentaire engendre un déficit de croissance osseuse verticale et horizontale, ce qui rend le plus souvent nécessaire une reconstruction osseuse en cas de réhabilitation implantaire [3]. La prise en charge de ces patients repose sur deux points clés : la pluridisciplinarité et la coordination entre les différents professionnels de santé avec une prise en charge précoce, si possible dès l'enfance [4].

Les Centres de Référence Maladies Rares (CRMR) et de Compétence (CCMR), tels que le service d'Odontologie du CHU de Toulouse (Centre de Référence), sont les partenaires privilégiés de cette coordination, notamment lors des étapes clés de cette prise en charge [5] :

- 1) Diagnostic des agénésies dentaires multiples (hypodontie, oligodontie, anodontie)
- 2) Planification du projet thérapeutique

Le projet thérapeutique implique généralement une prise en charge orthodontique en amont permettant une réhabilitation implanto-prothétique dans les meilleures conditions possibles. Cette thérapeutique implantaire nécessite néanmoins une reconstruction osseuse chirurgicale afin de compenser la qualité et la quantité osseuse souvent insuffisantes. Les équipes soignantes ont un large choix de reconstructions osseuses pré-implantaires, greffes osseuses d'apposition horizontale ou verticale, régénération osseuse guidée, élévation du plancher sinusien... les techniques référencées dans la littérature sont multiples [6].

L'objectif de ce travail est de faire le point sur les protocoles de reconstruction osseuse pré-implantaire et les gains de volumes osseux obtenus, chez les patient(e)s avec oligodontie suivi(e)s au sein de l'Unité de Chirurgie Orale et Réhabilitation (UCOR) du service de médecine bucco-dentaire du CHU de Toulouse.

PARTIE 1

1. Contexte et justification de l'étude

1.1. Définition et prévalence des agénésies dentaires

L'agénésie dentaire correspond à une anomalie dentaire de nombre par défaut en raison de l'absence du développement d'un ou plusieurs germes dentaires. Le terme "agénésie" est un nom féminin d'origine grecque ("a-" qui signifie "privatif" et *genesis* qui signifie "formation"). Il fait ainsi référence à l'absence totale de développement d'un tissu ou d'un organe survenu avant la naissance. L'agénésie dentaire peut affecter la denture temporaire et/ou permanente, et peut être unilatérale ou bilatérale. Lorsqu'elle concerne plus de deux dents, on parle d'agénésie dentaire multiple. En comparant les agénésies unilatérales ou bilatérales, Polder et al. (2004) et l'équipe de Nieminen [7] ont mis en évidence que les agénésies sont plus fréquemment bilatérales (symétriques).

L'hypodontie fait référence à l'absence de moins de 6 dents (*Figure 1*). Les dents les plus fréquemment concernées d'après Polder (2004) sont les deuxièmes prémolaires (15 à 32%), les incisives latérales maxillaires (27%), et les troisièmes molaires (25%). Les agénésies des incisives centrales, des canines et des molaires sont plus rares. [8], [9]. L'oligodontie, quant à elle, se caractérise par l'absence de plus de 6 dents. Elle peut être isolée ou associée à d'autres symptômes (dite syndromique). Les troisièmes molaires ne sont pas prises en compte dans le calcul du nombre des dents manquantes pour qualifier l'oligodontie. Enfin, l'anodontie se caractérise par l'absence de toutes les dents (plus rare) (*Figure 2*).



Figure 1: Patient (35ans) atteint d'oligodontie (ici 18 agénésies dentaires).
A gauche : Vue endobuccale des arcades maxillaire et mandibulaire.
A droite : orthopantomogramme
UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse



Figure 2 : Patient (12 ans) atteint d'anodontie.
A gauche : Vue endobuccale des arcades maxillaire et mandibulaire.
A droite : orthopantomogramme

UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse

1.2. Étiologies des agénésies dentaires

Les étiologies des agénésies dentaires sont multiples et souvent génétiques. Elles peuvent être isolées ou s'inscrire dans le tableau clinique d'un syndrome.

Dans le cadre des agénésies dentaires non syndromiques, 80% des cas sont dus à une mutation de gènes impliqués dans le développement dentaire et crânio-facial et 20% des cas sont causés par des facteurs environnementaux exogènes (chimiothérapie, radiothérapie, rubéole congénitale, origine médicamenteuse lors de prise de thalidomide, agents

antinéoplasiques) au stade embryologique, lors du développement des bourgeons dentaires des dents permanentes.

Afin de comprendre l'origine de ces anomalies, remontons à la phase de l'odontogenèse durant laquelle de nombreux gènes codent pour des facteurs de signalisation et des facteurs de transcriptions. Ces gènes sont ainsi impliqués dans les séquences d'initiation et de morphogénèse des dents. Nous retrouvons près de 300 gènes impliqués dans la morphogénèse dentaire tels que MSX1, PAX9, WNT10A, AINX2, EDA, SPYR2, TGFA, BM4. Parmi ces derniers, PAX9, MSX1 et EDA sont les plus associés aux agénésies dentaires non syndromiques [10].

Les agénésies dentaires syndromiques sont associées à plus de 60 syndromes différents selon le répertoire OMIM (*Online Mendelian Inheritance in Man*) [11]. Ces syndromes affectent les dents mais aussi fréquemment les autres structures ectodermiques, peau, cheveux, ongles et glandes sudoripares [10] [12]. Parmi les syndromes les plus fréquents nous retrouvons :

- La Dysplasie Ectodermique Hypohidrotique (DEH) : associant oligodontie, hypohidrose et hypotrichose [1] et [13] (*Figure 3*) ;
- L'*incotinenta pigmenti* (lésions cutanées et anomalies neurologiques et rétiniennes) [14] ;
- Le syndrome EEC (*Ectrodactyly- ectodermal dysplasia clefting syndrome*) : associe ectrodactylie (absence d'un ou plusieurs doigts), anomalie cutanée, trouble oculaire et surdité ;
- Le syndrome d'Axenfeld-Rieger : associe troubles oculaires sévères et hypodontie [15].

La liste des syndromes n'est pas exhaustive. Les tests génétiques revêtent ainsi une grande importance afin d'orienter le diagnostic des agénésies dentaires génétiques ou non, isolées ou syndromiques [13], [13].



Figure 3 : Patients atteints de dysplasie ectodermique hypohidrotique pour lesquels nous notons une hypotrichose (cheveux épars ainsi qu'un affaissement de l'étage facial inférieur du fait d'oligodontie.

UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse.

1.3. Anomalies bucco-dentaires associées aux agénésies dentaires

Dans un contexte d'agénésies dentaires multiples, diverses anomalies bucco-dentaires sont rencontrées (*Figure 4*) :

- Anomalies squelettiques : un maxillaire atrophié souvent associé à une malocclusion de classe III ainsi qu'un étage facial inférieur diminué, notamment dû au défaut de croissance des procès alvéolaires, conditionné par les phénomènes d'éruption dentaire [14] [15] [16].
- Anomalies des tissus mous : la diminution de l'étage inférieur de la face engendre fréquemment un profil de type bi-rétrusif, une retrochéilie associée à un sillon labio-mentonnier marqué avec éversion de la lèvre inférieure [17].
- Anomalies alvéolaires : les dimensions des procès alvéolaires sont diminuées en regard des zones agénésiées. En effet, il est admis que la formation des procès alvéolaires dépend du développement et de l'éruption dentaire. Les agénésies dentaires entraînent ainsi un défaut de croissance osseuse avec une morphologie de l'os assez caractéristique en « lame de couteau » (*Figure 6*). Par ailleurs, d'après l'étude de Schropp et al. de

2003, une perte de dent entraîne systématiquement un défaut osseux associé [18] et une perte précoce des dents temporaires conduit à un défaut osseux majoré [19] [20].

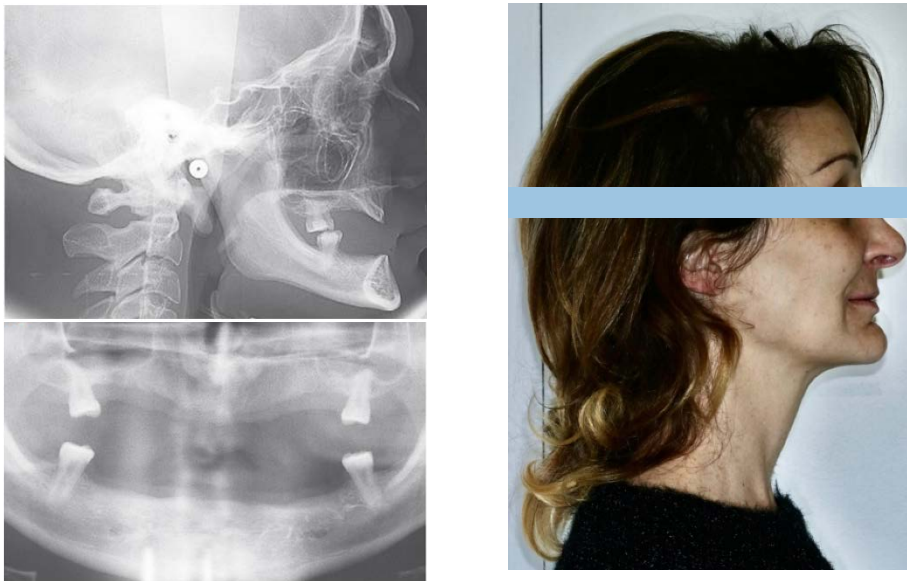


Figure 4 : Radiographies (orthopantomogramme et téléradiographie de profil à gauche) et photographie (à droite) illustrant les anomalies squelettiques, alvéolaires et des tissus mous associés aux agénésies multiples. On remarque une diminution de l'étage facial inférieur avec un retro-chéilie et un sillon labio-mentonnier marqué. UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse.

1.4. Diagnostic et prise en charge

L'évaluation clinique et radiologique initiale, le diagnostic ainsi que la prise en charge globale du(de la) patient(e) atteint d'agénésies multiples sont, le plus souvent, coordonnés par un(e) chirurgien-dentiste affilié(e) à un Centre de Référence/Compétence Maladies rares (CRM/R/CCMR).

Les thérapeutiques reposent sur une coopération pluridisciplinaire étroite et évoluent en fonction de l'âge du(de la) patient(e). Parmi les professionnels de santé impliqués dans la prise en charge des patients atteints d'oligodontie, sont généralement retrouvés : des chirurgiens-dentistes de spécialités diverses (odontologie pédiatrique (OP), orthopédie dento-faciale (ODF), chirurgie orale, implantologie, parodontologie, réhabilitation prothétique ...), un(e) généticien(ne) clinicien(ne), un(e) chirurgien maxillo-facial, des pédiatres ou médecins généralistes. Ces professionnel(le)s travaillent ainsi conjointement afin de garantir la meilleure prise en charge possible.

En France, il existe 16 Centres de Référence/Compétences en Maladies rares (annexe 2) [21], dont 4 centres de Références permettant d'accueillir ces patients. Un centre de référence

rassemble une équipe hospitalière hautement spécialisée ayant une expertise avérée pour un groupe de maladies rares et qui développe son activité dans les domaines de soins, de l'enseignement-formation et de la recherche. Il assure une prise en charge pluridisciplinaire et pluriprofessionnelle pour le diagnostic, la prise en charge globale et le suivi de ces patient(e)s. Son rayonnement est non seulement local (population de proximité) mais aussi régional, national et peut s'étendre en dehors des frontières territoriales. Un centre de compétence assure la prise en charge et le suivi des patient(e)s de proximité, sur la base d'un maillage territorial adapté et en lien avec le centre de référence en maladie rare dont il dépend fonctionnellement [22].

Le service d'Odontologie du CHU de Toulouse est un centre de référence qui assure le diagnostic et la prise en charge de ces dernier(e)s au sein de l'UCOR. Cette unité regroupe diverses spécialités telles que l'ODF, l'OP, la chirurgie orale, la parodontologie et la réhabilitation complexe.

Dans le service, les patient(e)s sont diagnostiqué(e)s par des chirurgiens-dentistes et/ou internes puis adressé(e)s chez le(la) généticien(ne) clinicien(ne). Ce(tte) dernier(ère) complète le diagnostic clinique afin d'évaluer le caractère isolé ou syndromique des agénésies. Le dossier de chaque patient(e) est ensuite présenté en Réunion de Concertation Pluridisciplinaire (RCP) devant l'ensemble de l'équipe de l'UCOR. Le plan de traitement est ensuite établi et une demande de prise en charge en affection longue durée (ALD 31) est effectuée auprès de la sécurité sociale (*Figure 5*) (annexe 1).

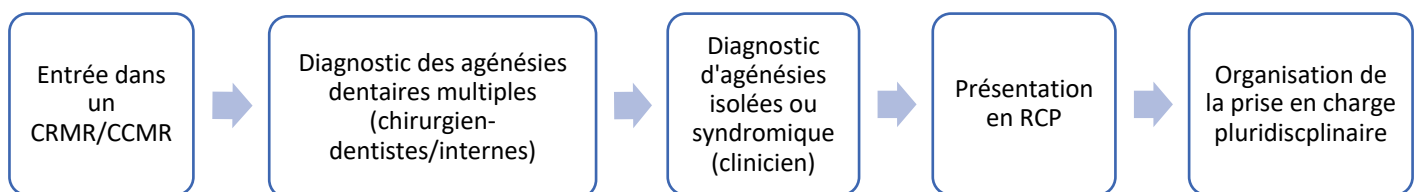


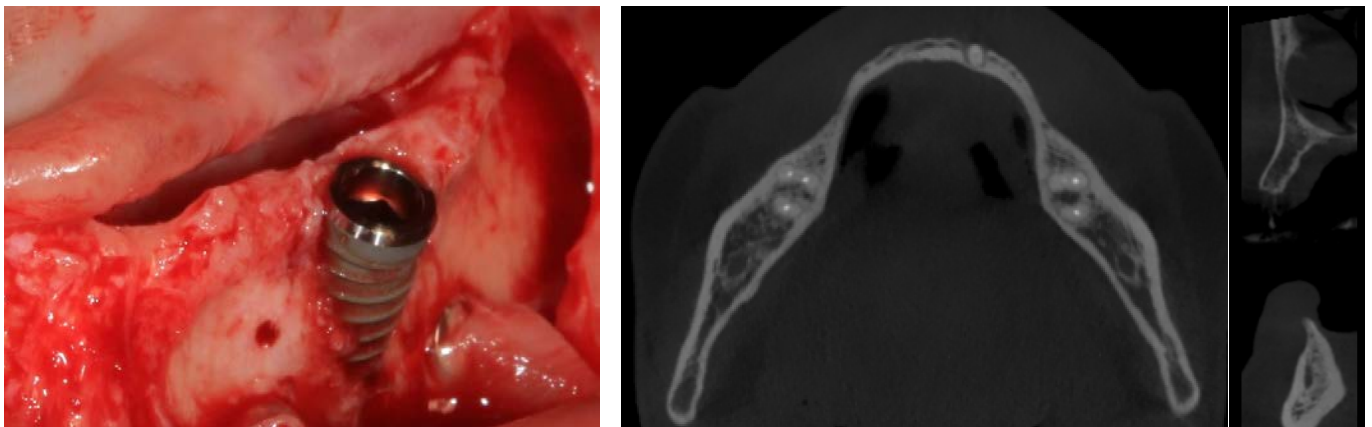
Figure 5 : Schéma de prise en charge des patients avec agénésies multiples dans le service d'Odontologie du CHU de Toulouse

Les patient(e)s pris(es) en charge au sein du service sont le plus souvent jeunes, avec une demande esthétique importante et une volonté de réhabilitation fixe, les poussant ainsi à préférer

une solution prothétique implanto-portée. L'Assurance Maladie prend en charge la pose des implants ainsi que les aménagements chirurgicaux des sites implantaires engendrant ainsi un accroissement de la demande des réhabilitations implanto-prothétiques.

1.5. Aménagements osseux pré-implantaires

Les impératifs prothétiques guident la réalisation du traitement implantaire et nécessite de ce fait un volume osseux adéquat. Or comme indiqué précédemment, l'absence de dents engendre des défauts de croissances alvéolaires à l'origine d'un os en « lame de couteau », rendant ainsi la réhabilitation implanto-prothétique plus complexe (*Figure 6*).



*Figure 6 : Crête mandibulaire en aspect "lame de couteau" chez un patient atteint d'agénésies multiples.
A gauche : photographie intrabuccale lors de la mise en place complexe d'un implant mandibulaire.
A droite : Coupes radiologiques de CBCT illustrant la finesse de la crête.
UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse*

Des chirurgies d'aménagement du/des site/s implantaire/s sont souvent nécessaires pour pallier l'insuffisance osseuse et augmenter le volume des crêtes édentées ; il est souvent nécessaire de recourir aux techniques chirurgicales d'augmentation osseuse suivantes : [23]

- Comblement pré-implantaire sous-muqueux du sinus maxillaire
- Distraction osseuse alvéolaire (expansion horizontale ou verticale des crêtes)
- Ostéoplastie additive de l'arcade dentaire (greffe en onlay, régénération osseuse guidée...)
- Transposition du nerf alvéolaire inférieur par abord intra buccal

Il existe une multitude de techniques d'aménagements osseux pré-implantaires que nous trouvons dans la littérature avec différents matériaux osseux associés tels que : l'os autogène

(provenant du patient lui-même), l'os xénogène (origine animale), l'os allogène (origine humaine) ou l'os alloplastique (synthétique) [24]. Les greffes d'os autogènes sont considérées comme le *gold standard* d'après la littérature actuelle[6]. Néanmoins selon différentes situations, les autres substituts osseux permettent d'atteindre de bons résultats également, diminuant ainsi les risques de morbidité liés au prélèvements osseux sur le patient.

2. Objectifs de l'étude

Depuis la création de l'UCOR en 2015 au sein du service d'odontologie du CHU de Toulouse, la prise en charge des patient(e)s atteints d'agénésies multiples a augmenté de manière significative avec une amélioration de leur accompagnement dans leurs thérapeutiques tout au long de leur vie. Dès l'enfance, ces patient(e)s reçoivent des soins conservateurs, de prothèses pédiatriques provisoires et d'interception orthodontique ; à l'adolescence, les traitements ODF sont généralement initiés, accompagnés de prothèses évolutives amovibles ou fixes. Enfin à l'âge adulte, la réhabilitation prothétique d'usage et les chirurgies préopératoires sont réalisées (pré-, per- et post-implantaire, et implantaire) en accord avec le protocole national de diagnostics et de soins (PNDS 2021) ; un traitement ODF peut être réalisé chez les adultes n'ayant pas bénéficié d'une prise en charge précoce de leur oligodontie (*annexe 3*).

Ainsi l'objectif principal de cette étude descriptive rétrospective était d'évaluer radiologiquement le gain osseux après la première reconstruction osseuse chez les patient(e)s atteints d'agénésie dans le service d'odontologie du CHU de Toulouse (de 2016 à 2023).

PARTIE 2

1. Matériel et méthode

1.1. Conception de l'étude

Cette étude rétrospective monocentrique a été réalisée au sein du Centre de Référence en maladies O-Rares (service de médecine bucco-dentaire) du CHU de Toulouse. L'étude a débuté en mai 2022 pour se terminer en mai 2023.

1.2. Objectifs et critères de jugements

L'objectif principal de notre étude consistait en l'évaluation du gain osseux radiologique après reconstruction osseuse chez les patient(e)s atteints d'agénésies multiples suivi(e)s au sein de l'UCOR du service de médecine bucco-dentaire CHU de Toulouse. Le critère de jugement principal répondant à notre objectif était la différence de volume osseux radiologique obtenu en mm³ avant et après la première greffe osseuse.

Les objectifs secondaires étaient les suivants :

1. dresser un bilan des protocoles de reconstruction osseuse pré-implantaire chez les patient(e)s avec oligodontie

2. évaluer le maintien du volume osseux après mise en fonction de la prothèse sur implant. Les critères de jugements secondaires correspondant sont les types de reconstructions réalisées, les biomatériaux utilisés, les délais entre les chirurgies et le *Cone Beam Computed Tomography* (CBCT), les délais entre deux chirurgies (osseuse et/ou implantaire), entre l'implantation et la mise en charge prothétique et le délai entre la mise en fonction et le dernier CBCT réalisé dans le service.

1.3. Population

1.3.1 Modalité de recrutements

Dans cette étude nous avons recruté les patient(e)s atteint(e)s d'agénésies multiples en recherchant dans tous les dossiers ayant été présentés en RCP dans le cadre de UCOR entre 2016-2023. Ces dossiers de RCP ont ainsi pu être complétés avec les bilans du généticien-clinicien.

Un total de 240 patient(e)s a ainsi été obtenu.

1.3.2 Critères d'éligibilités

Critères d'inclusions :

- Patient(e)s majeur(e)s ;
- Patient(e)s présentant deux ou plus agénésies dentaires ;
- Patient(e)s dont le dossier a été présenté en RCP ;

- Patient(e)s greffé(e)s (reconstruction osseuse pré et/ou per-implantaire) dans le service d'odontologie du CHU de Toulouse entre 2016 et 2023 ;
- Existence d'un CBCT avant reconstruction osseuse exploitable pour notre étude (évaluation du volume initial V_0) ;
- Existence d'un CBCT après reconstruction osseuse exploitable pour notre étude (évaluation du volume osseuse V_1) ;

Critères de non inclusions :

- Patient(e)s ne présentant pas d'agénésies dentaires ;
- Absence de radiographies tridimensionnelles avant et après intervention ;
- Absence de radiographies exploitables (champs d'acquisition différents entre les CBCT V_0 et V_1 ne permettant pas d'analyse comparative entre les deux volumes) ;
- Manque d'informations dans les logiciels ODS[®] et Orbis[®] (absence d'informations concernant le type de greffe osseuse, les biomatériaux et les quantités utilisés lors de l'intervention) ;

1.3.3 Population retenue

La population initiale était de 240 patient(e)s (dossiers issus de RCP). 125 patient(e)s, trop jeunes pour bénéficier d'une chirurgie osseuse (contre-indication à la chirurgie pré-implantaire), ont été exclu(e)s de l'étude.

Parmi les 115 patient(e)s restants, 80 ont été perdu(e)s de vue après la RCP (absence de réponse de leur part, absence de reprise de contact, COVID-19...). 13 patient(e)s ont été par la suite suivi(e)s en dehors du CHU et ont ainsi été exclu(e)s. Parmi les 22 patient(e)s restant(e)s, les CBCT de 8 patient(e)s n'ont pas pu être exploités (champs d'acquisitions différents entre le CBCT V_0 avant et V_1 après greffe osseuse) et 2 autres patient(e)s ont été exclu(e)s par manque d'informations dans leurs dossiers concernant les types de greffes osseuses, les matériaux utilisés et/ou leur quantités.

Finalement, après avoir exclu un(e) patient(e) pour agénésie unique, nous avons ainsi obtenu 11 patient(e)s avec 21 sites ayant été greffés (*Figure 7*).

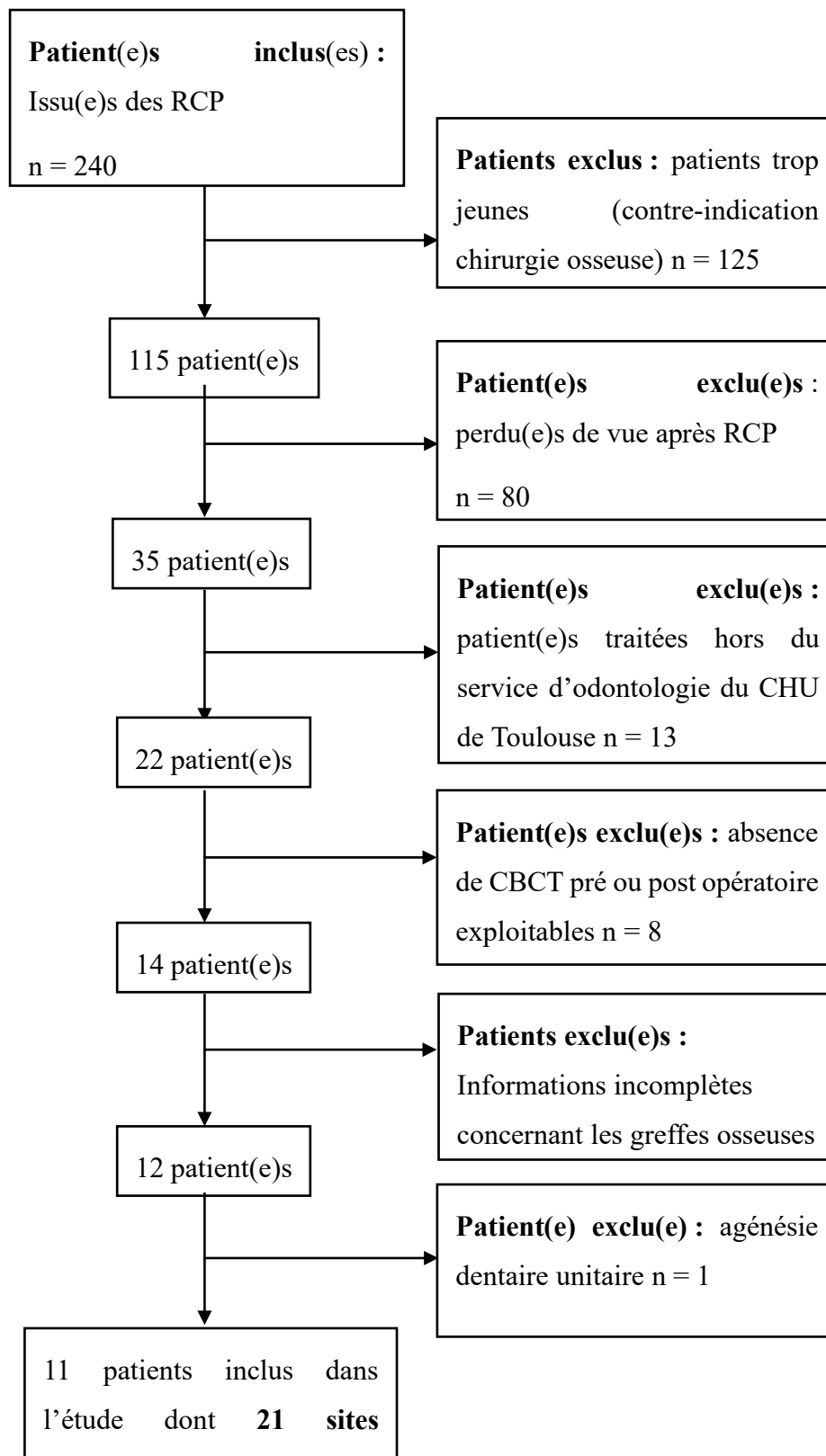


Figure 7 : Diagramme de flux représentant l'inclusion des patient(e)s dans l'étude.

1.4. Collecte des données

Notre échantillon était composé de 21 sites chez 11 patient(e)s atteint(e)s d'agénésies multiples. Chaque dossier, complet, comprenait les informations nécessaires concernant le type d'agénésies dentaires, le type de greffe osseuse, les biomatériaux utilisés ainsi que leurs quantités respectives, les délais entre les radiographies et les interventions ont également été relevés dans les logiciels métiers ODS[®] et Orbis[®].

Les images radiographiques ont été réalisées avec un système d'imagerie dentaire 3D (Carestream[®] CS9600 3D Imaging) et exportées sous forme d'un ensemble de fichiers DICOM (*Digital Imaging and Communications in Medicine*).

Classiquement, pour chaque patient(e) un CBCT préopératoire est effectué afin d'analyser le volume osseux et planifier la chirurgie : type de reconstruction osseuse, pose concomitante d'un ou plusieurs implants ou non. Après intervention chirurgicale un nouveau CBCT est réalisé afin d'évaluer la greffe osseuse et la nécessité ou non pour certain(e)s patient(e)s de réintervenir avant ou pendant la pose de l'implant.

L'étude approfondie des dossiers nous a permis de mettre en évidence 2 groupes :

- Groupe 1 : Implantation concomitante à la greffe osseuse : 10 sites
- Groupe 2 : Greffe osseuse préalable à la mise en place des implants : 11 sites

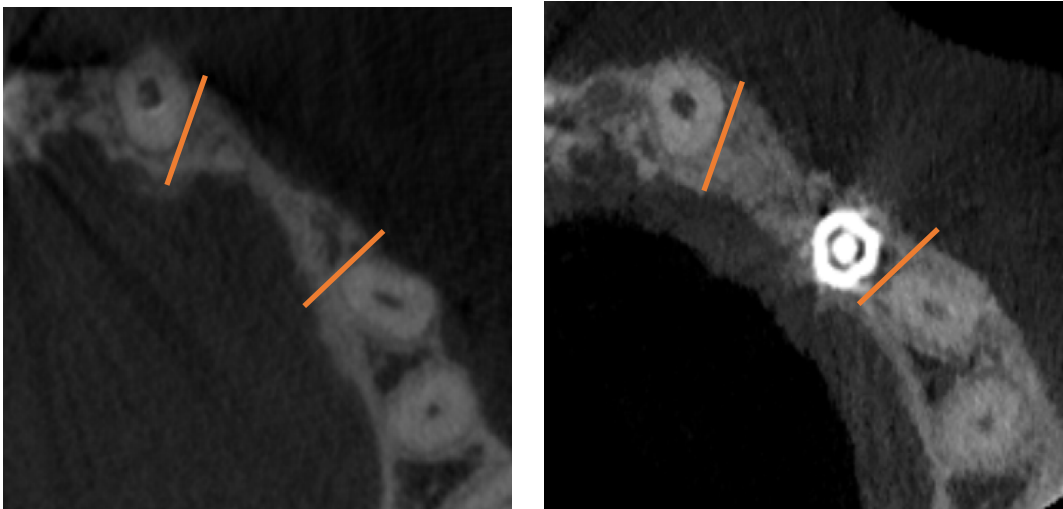
1.5. Protocole de segmentation et calcul de volumes osseux :

Les CBCT des patient(e)s inclus(e)s avaient des champs d'acquisition suffisamment similaires pour permettre de comparer les volumes osseux avant et après chirurgie de reconstruction osseuse. Néanmoins, les champs d'acquisition n'étant pas exactement identiques avant et après greffe osseuse pour un même site, la superposition des fichiers DICOM n'a pas pu être possible et nous avons dû utiliser une autre méthodologie pour comparer les deux volumes.

1.5.1. Mise en évidence de repères anatomiques sur fichiers DICOM

Pour les 21 sites étudiés, le volume osseux initial (V_0) puis le volume osseux après reconstruction osseuse (V_1) ont été mesurés.

Dans un premier temps, pour chaque patient(e) inclus(e), les fichiers DICOM pré puis post greffes osseuses ont été analysés afin de noter des repères anatomiques remarquables. A la mandibule par exemple les dents adjacentes de part et d'autre de notre volume osseux, un point proximal du foramen mentonnier, l'épine mentonnaire ainsi que les crêtes linguales et vestibulaires ont servi de repères. Au maxillaire, les dents adjacentes, les parois sinusiennes (paroi supérieure ou inférieure), les fosses nasales, le canal naso-palatin ainsi que les tables osseuses palatines et vestibulaires ont servi de repères (*Figure 8*). Ces éléments anatomiques ont permis de comparer, segmenter et calculer les volumes V_0 et V_1 au sein de chaque site.



*Figure 8 : Coupes axiales d'un CBCT maxillaire. A gauche : situation initiale. A droite : après implantation et greffe osseuse
Les traits orange délimitent la zone d'intérêt étudiée, ici située entre 21 et 24. UCOR service de médecine Bucco-dentaire,
CHU de Toulouse*

1.5.2. Segmentation avec le logiciel 3D Slicer

Le calcul des volumes osseux et leur segmentation ont été réalisés par le logiciel 3D Slicer[®] version 5.0.2 (www.slicer.org) qui est un logiciel de visualisation et de traitements d'images [25] [26]. Ce logiciel est un logiciel de type *open source* (développement collaboratif et décentralisé) et est distribué sous une licence de type BSD pour l'analyse, l'intégration et la visualisation d'images médicales. La segmentation est une opération de traitement d'images ayant pour but de rassembler les pixels homogènes entre eux selon leur intensité, c'est-à-dire selon leur niveau de seuillage de gris. Ce processus permettant *in fine* de reconstruire l'image d'intérêt segmentée. Chaque analyse a été effectuée site après site pour un même patient et les repères anatomiques soigneusement identifiés et notés.

Une fois le fichier DICOM importé dans le logiciel 3D Slicer[®], la radiographie a pu être visualisée dans les 3 dimensions de l'espace : coupe axiale, coupe frontale et coupe sagittale (*Figure 9*). La segmentation a ensuite été réalisée sur le logiciel en sélectionnant minutieusement le volume d'intérêt (VOI). Un premier seuillage de gris (changement de contraste permettant de visualiser les différents niveaux de gris en fonction de la densité anatomique) a permis de sélectionner le volume dont la densité nous intéresse (*Figure 10*). Par exemple ne sélectionner que le tissu osseux en excluant les muqueuses (moindre niveau de gris que l'os) ou les dents (niveau de gris plus importante que l'os car plus dense que l'os). Cela a permis ainsi d'être plus précis lors de notre segmentation. Nous avons été attentifs à relever les valeurs supérieure et inférieure de notre seuillage afin d'entrer les mêmes valeurs lors de la segmentation du volume osseux V_1 .

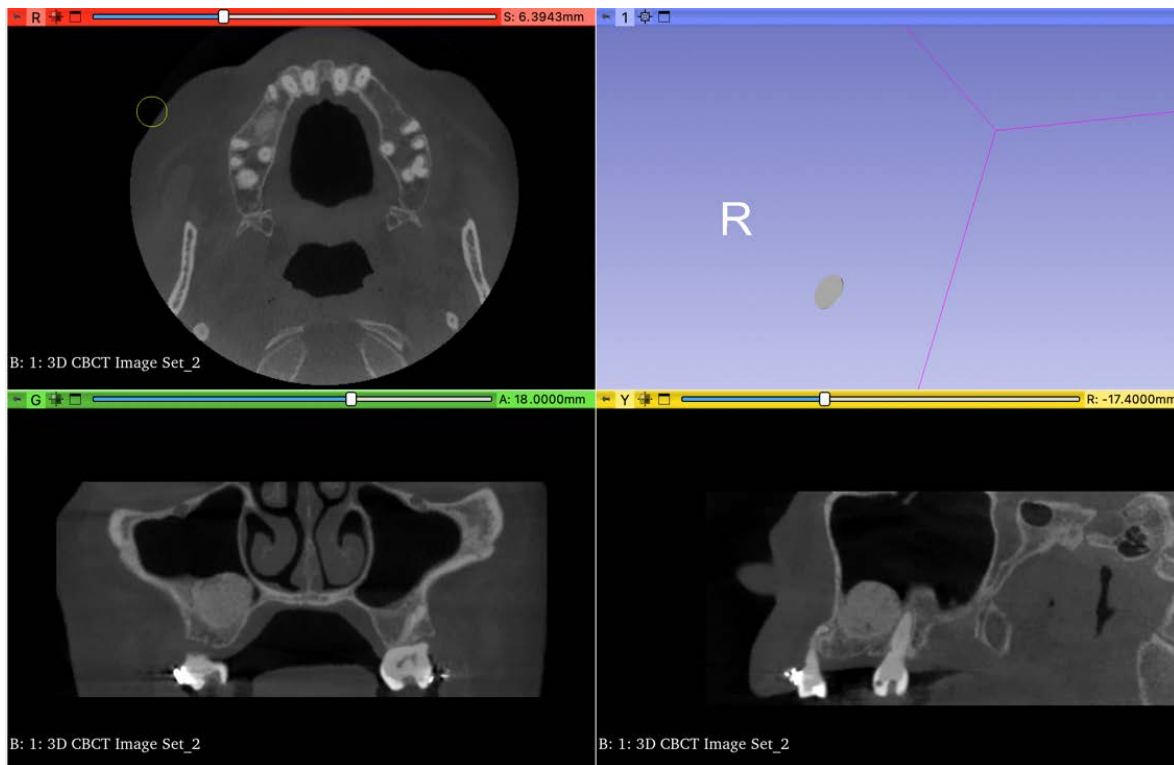


Figure 9 : Visualisation du fichier DICOM sur le logiciel 3D Slicer. La fenêtre rouge : coupe axiale; fenêtre verte : coupe frontale; fenêtre jaune : coupe sagittale; la fenêtre bleue correspond à la visualisation tridimensionnelle de notre futur volume osseux segmenté UCOR, service de médecine bucco-dentaire, CHU Toulouse.

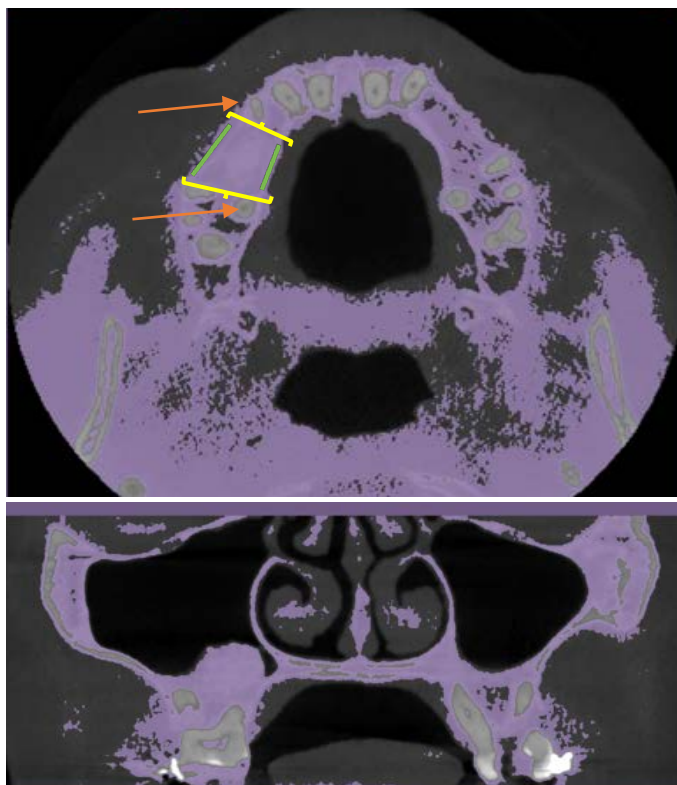


Figure 10 : Seuillage de gris afin de sélectionner le volume osseux d'intérêt sur le logiciel « 3D Slicer » : Flèches orange : repères axiaux ; Crochets jaune : repères sagittaux entre 13 et 16 ; lignes vertes : repères frontaux situés entre les parois. UCOR, service de médecine bucco-dentaire, CHU Toulouse

Dans le cas de l'élévation du plancher sinusien du secteur 1 du cas présenté (Figure 10) :

- Axialement : sélection de la partie la plus coronaire de la crête osseuse jusqu'à la dernière coupe sur laquelle apparaît l'apex de la racine palatine des dents 13 et 16.
- Sagittalement : sélection du volume osseux situé entre 13 et 16
- Frontalement : sélection du volume osseux entre les parois vestibulaire et palatine de notre zone d'intérêt.

Une fois le VOI sélectionné, celui-ci a pu être visualisé tridimensionnellement, puis la reconstruction a pu être exportée au format de fichier de stéréolithographies (.stl) et le volume quantifié. Les figures 10 et 11 illustrent la segmentation du volume osseux situé entre les dents 11 et 16 avant (Figure 11) et après (Figure 10) reconstruction osseuse.

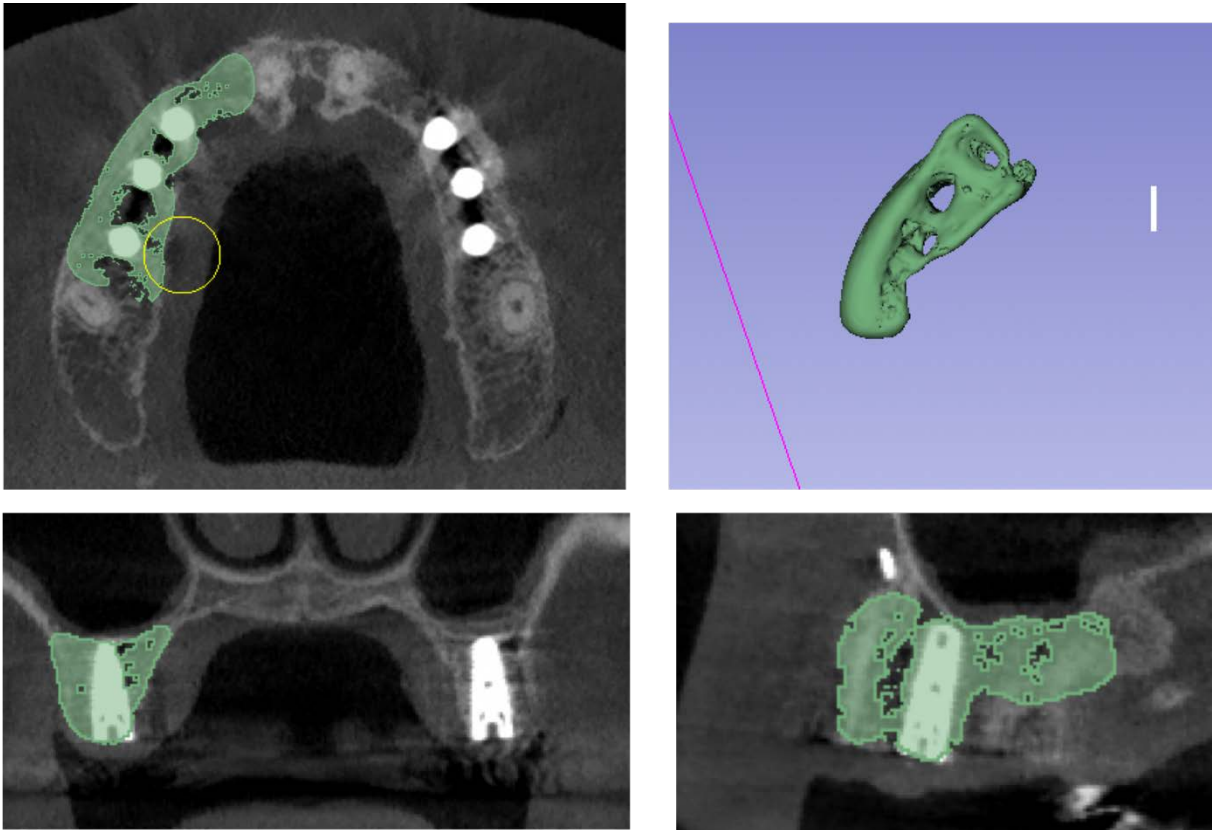


Figure 10: Sélection du volume osseux V_1 selon les repères anatomiques définis. Le volume osseux est délimité par les parois corticales et vestibulaires que les dents adjacentes de part et d'autre (11 et 16).

Haut à droite : visualisation du volume osseux 3D V_0

UCOR, service de médecine bucco-dentaire, CHU Toulouse.,

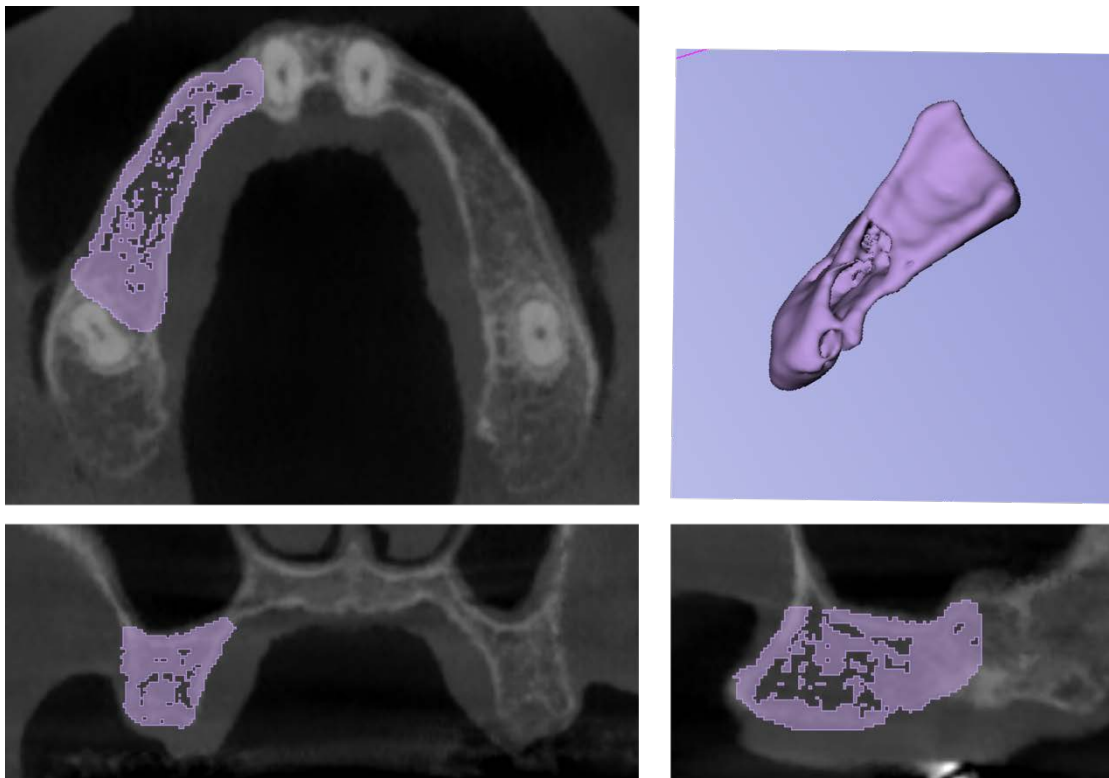


Figure 11 : Sélection et segmentation du volume osseux V_0 en choisissant exactement les mêmes repères que pour la sélection du volume V_1 .

UCOR, service de médecine bucco-dentaire, CHU Toulouse

Le volume V_1 (après reconstruction osseuse) calculé, nous segmentons et calculons le volume V_0 (volume osseux initial) en rentrant les mêmes caractéristiques dans le logiciel 3D Slicer (seuillage de gris, repères anatomiques similaires etc.). Les volumes V_1 et V_0 extraits, nous pouvons ainsi les comparer et calculer la différence entre ces deux volumes (Figure 12).

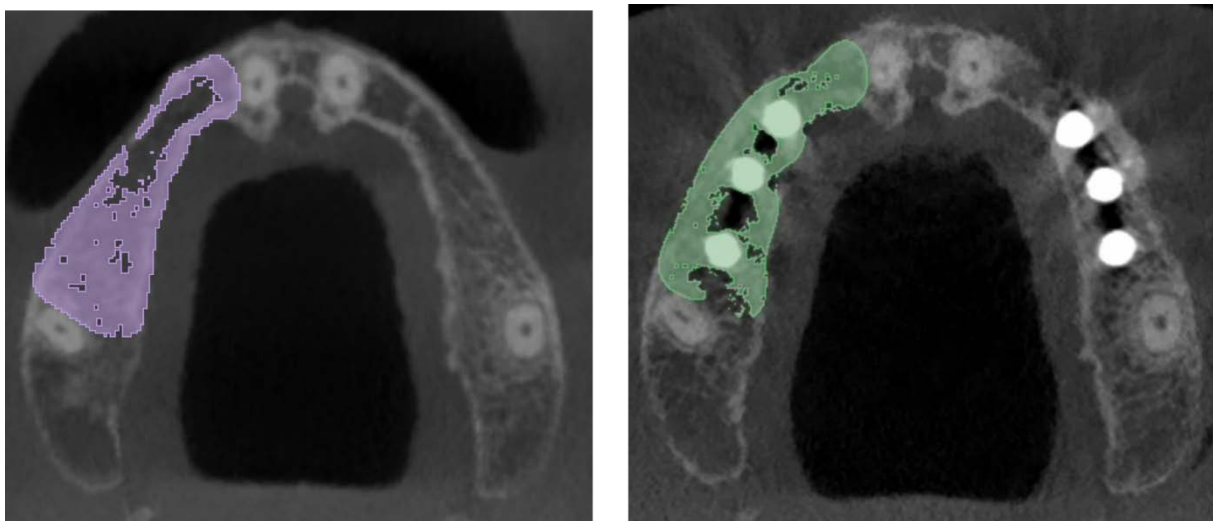


Figure 12: sélection des volumes osseux d'intérêts V_0 (à gauche) et V_1 (à droite) sur le logiciel 3D Slicer
UCOR, service de médecine bucco-dentaire, CHU Toulouse.

Concernant cette méthodologie de calcul de volumes osseux, la réalisation de leurs segmentations sur le logiciel *3D Slicer*[®], bien que se voulant le plus précis et reproductible possible dans son calcul, a pu présenter néanmoins des limites du fait de la délimitation osseuse manuelle, dépendant de l'opérateur. Afin de palier le plus possible à cette limite, une calibration a été effectuée sur une patiente en effectuant la segmentation trois fois à la suite afin d'obtenir 3 valeurs jugées suffisamment proches pour valider la reproductibilité de la méthode de segmentation. En effet les valeurs obtenues étaient les suivantes pour un volume osseux : 623,95 mm³, 627,93 mm³ et 628,80 mm³, moyenne étant donc de 626,89 mm³, et l'écart-type de 2,5 mm³.

1.6. Évaluation du gain de volume osseux

Les segmentations réalisées, nous obtenons différents volumes osseux. Le volume osseux initial (V_0) et le volume osseux après première reconstruction osseuse (V_1). Le différentiel entre V_1 et V_0 nous permet d'obtenir une valeur $\partial+$ correspondant au gain osseux obtenu après reconstruction osseuse.

Sur certains sites (4 sites pour le groupe 1 et 3 sites pour le groupe 2), un CBCT a été réalisé après la MEC prothétique. Ce CBCT nous a donné la possibilité d'évaluer une éventuelle perte osseuse volumique $\partial-$ après cette MEC. La valeur $\partial-$ correspond ainsi à la perte d'os entre le CBCT après la dernière chirurgie de reconstruction osseuse et le dernier CBCT (après MEC). Pour le groupe 1 par exemple, il s'agit du différentiel volumique obtenu entre V_1 (volume après greffe osseuse 1) et V_{1bis} (volume après MEC) alors que dans le groupe 2 (uniquement sujet 4), il s'agit du différentiel de volume obtenu entre V_3 (volume après la 3^e greffe osseuse) et V_{3bis} (volume après MEC).

1.7. Méthodologie de l'étude

Les volumes osseux ont été segmentés et toutes les informations de chaque patient(e) relevées : type d'agénésies, délai d'intervention entre le CBCT et la reconstruction osseuse, type de reconstruction osseuse, matériaux utilisés, implantation concomitante ou non.

Deux groupes ont été constitués :

- Groupe 1 : Implantation concomitante à la greffe osseuse
- Groupe 2 : Greffe osseuse préalable à la mise en place des implants

Dans le groupe 1 nous avons recueilli 10 sites. Dans le groupe 2 nous avons obtenu un total de 11 sites dont 8 sites comprenant une greffe osseuse puis implantation, 1 site avec greffe osseuse puis implantation concomitante à une greffe osseuse et 2 sites comprenant une greffe osseuse puis une nouvelle greffe osseuse puis implantation concomitante à une greffe osseuse (*Tableau 1*).

Groupe 1	Groupe 2
Implantation concomitante à la greffe osseuse	Greffe osseuse puis implantation
10 sites	11 sites : <ul style="list-style-type: none"> - 8 sites : greffe puis implants - 1 site : greffe puis greffe avec implants - 2 sites : greffe puis greffe puis greffe avec implants

Tableau 1 : Répartition des sites étudiés dans les groupes 1 et 2.

2. Résultats

2.1. Caractéristiques de la population étudiée

Sur les 240 dossiers initiaux, 11 patient(e)s ont été inclus(e)s (soit 21 sites) (*Tableau 2*). Dans la population, 76% (soit 8 sujets) présentaient des agénésies syndromiques (majoritairement associées à une dysplasie ectodermique) et 24% (soit 3 sujets) des agénésies isolées. Nous notons la mutation de WNT10 dans 45% des cas (soit 5 sujets), majoritairement associée à une dysplasie ectodermique, et aucune mutation génique pour deux patient(e)s (non syndromiques). Chez les patient(e)s présentant une oligodontie, nous avons observé au minimum 2 agénésies et au maximum 25 agénésies, 27 % des patient(e)s (soit 3 patient(e)s) présentaient 2 agénésies et 73% (soit 8 patient(e)s) présentaient une oligodontie, c'est à dire des agénésies d'au moins six dents permanentes. Dans notre étude, 90% étaient des femmes

contre 10% d'hommes. L'âge moyen des patient(e)s était de 31 ans ($\pm 13,76$ ans) au moment de la RCP, le sujet le plus jeune ayant 15 ans et le sujet le plus âgé ayant 56 ans. Au moment de la réalisation du premier CBCT V_0 , avant les reconstructions osseuses, l'âge moyen était de 32 ans ($\pm 13,5$ ans), le plus jeune sujet ayant 19 ans au moment du CBCT initial et 57 ans pour le sujet le plus âgé (*tableau 2*). La différence d'âge pour le plus jeune sujet entre le moment de la présentation de son dossier en RCP (15 ans) et de sa première radiographie pré-chirurgicale (19 ans) est expliquée par la période d'orthodontie, nécessaire avant d'envisager des réhabilitations prothétiques et donc des aménagements osseux préalables. 6 patient(e)s sur 11 ont bénéficié d'un traitement ODF avant les phases chirurgicales (durée de traitement moyen de 2 ans $\pm 1,3$ ans). En temporisation des phases chirurgicales implantaires, 5 patient(e)s étaient en cours de traitement ODF (temporisation avec dents postiches sur l'appareil multi-attache), 4 patient(e)s ont eu des prothèses amovibles, 1 une prothèse fixe et 1 n'a pas eu de réhabilitation en temporisation (du fait d'implantation en secteurs postérieurs).

Sujet	Sexe	Age lors de la RCP	Age à V0	Traitement ODF (années)	Nombre d'agénésies	Localisation des agénésies	Agénésies isolées ou syndrome	Gènes impliqués	Temporisation
1	Femme	56	57	-	7	14 15 22 24 25 35 45	Syndrome DEH	KREMEN1	-
2	Femme	18	19	2	10	13 17 23 27 37 35 32 42 45 47	Syndrome DEH	WNT10A	ODF
3	Femme	33	33	-	18	12 13 14 15 17 22 23 27 24 25 31 34 35 37 41 44 45 47	Syndrome DEH	WNT10A	Prothèse amovible
4	Femme	17	19	4	9	12 13 14 22 23 24 35 37 45	Isolées	WNT10A	ODF
5	Femme	36	38	-	12	13 14 15 17 23 24 25 27 35 45 44 45	DEH	WNT10A	Prothèse amovible
6	Femme	32	32	-	25	17 16 15 14 13 12 11 21 22 23 24 25 26 27 32 33 34 35 36 37 42 43 45 46 47	Syndrome Rieger	BAM PITX2	Prothèse amovible
7	Femme	19	20	1,5	8	14 15 12 22 24 25 35 45	Syndrome DEH	WNT10A	ODF
8	Femme	15	19	4	8	15 12 22 32 31 41 42 45	Syndrome DEA	EDA	ODF
9	Femme	44	46	-	2	12 22	Syndrome DEH	EDA	Prothèse amovible
10	Femme	46	47	1	2	12 22	Isolées	-	ODF
11	Homme	22	22	2	2	12 22	Isolées	-	Prothèse fixe

Tableau 2 : caractéristiques de la population étudiée.

DEH = Dysplasie Ectodermique Hypohidrotique ; ODF : orthopédie dento faciale

2.2. Caractéristiques des sites étudiés avant reconstruction osseuse

L'étude des 21 sites greffés a permis de mettre en évidence deux groupes.

Le groupe 1 comprenait 10 sites pour lesquels la mise en place des implants s'est faite en même temps que la greffe osseuse (GO) (Figure 13). Parmi ces 10 sites nous avons noté 1 échec du fait de l'exposition de 4 spires implantaires ; une régénération osseuse guidée (ROG) a permis de compenser cette perte osseuse dans un deuxième temps opératoire, avant la mise en charge prothétique des implants.

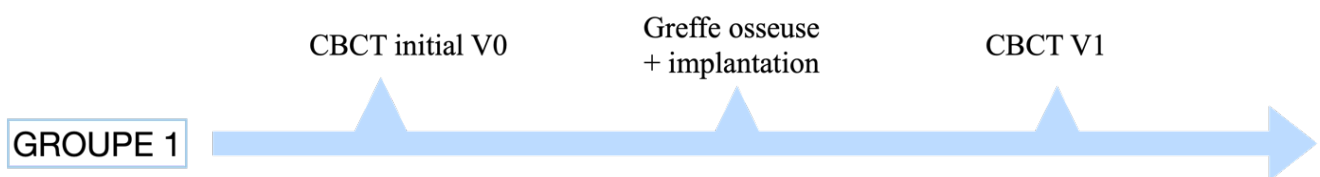


Figure 13 : Frise chronologique de prise en charge chirurgicale des sujets du Groupe 1

Le groupe 2, composé de 11 sites, comprenait des sites préalablement greffés puis implantés dans un second temps, après cicatrisations. Parmi ces 11 sites, 7 sites ont été greffés puis implantés, 2 sites ont été greffés puis implantés en même temps qu'une seconde greffe osseuse et 2 sites ont été greffés deux fois avant d'être implantés simultanément à une troisième greffe (Figure 14).

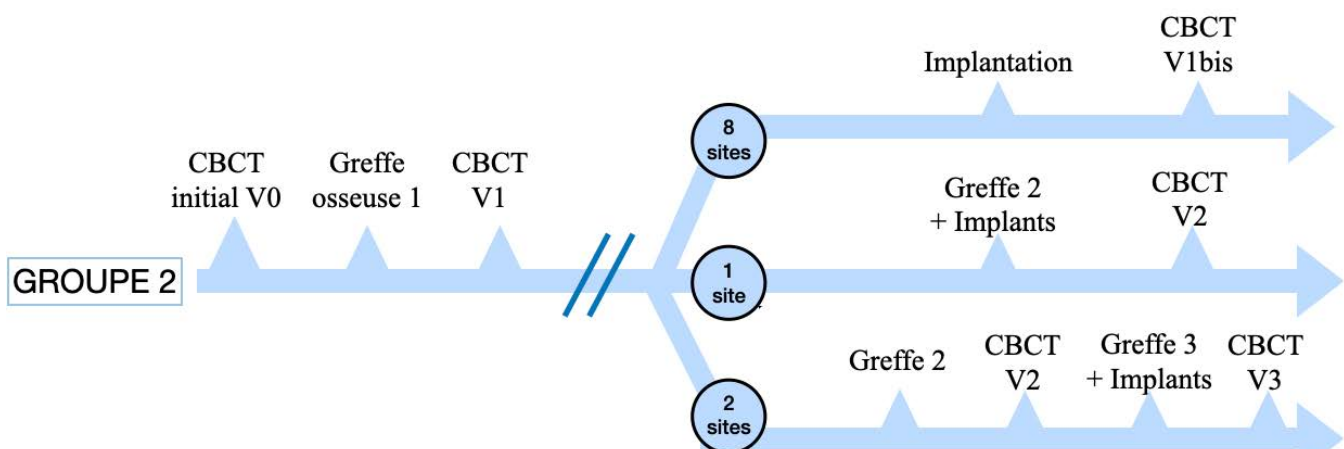


Figure 14 : Frise chronologique de prise en charge chirurgicale des sujets du Groupe 2

Groupe 1				Groupe 2				Groupe 1 et groupe 2			
Sujet	Nombre agénésies	Site(s)	Âge (années)	Sujet	Nombre agénésies	Site(s)	Âge (années)	Sujet	Nombre agénésies	Site(s)	Âge (années)
5	12	A1	36	2	10	B2 B3 B4	18	1	7	A7 B1	57
9	2	A8	44	4	9	B10 B11	17	3	18	A2 A3 B9	33
10	2	A4 A5	46	6	25	B5	32	8	8	A9 A10 B7	15
11	2	A6	22	7	8	B6 B8	19				

Tableau 3 : Répartition des sujets et des sites au sein des groupes 1 et/ou 2

Lorsque nous avons regardé plus attentivement la répartition des sujets au sein des groupes 1 et/ou 2, nous avons noté que 4 sujets (5,9,10,11) appartenait uniquement au groupe 1, leur moyenne d'âge au moment de la RCP était de 37 ans (± 10 ans) ; 4 sujets (2,4,6,7) appartenait uniquement au groupe 2, leur moyenne d'âge était de 21,5 ans (± 7 ans) au moment de la RCP ; 3 sujets appartenait à la fois au groupe 1 et 2 (1,3,8) avec une moyenne d'âge de 35 ans ($\pm 21,07$ ans) (Tableau 3). Le nombre d'agénésies dentaires du groupe 1 est de 4 dents (± 5) allant de 2 agénésies dentaires à 12 agénésies au maximum. Le nombre de dents absentes pour cause d'agénésies dans le groupe 2 est en moyenne 13 (± 8) avec un minimum de 8 dents et un maximum de 25 dents.

Dans le groupe 1, 90% des sites étaient symétriques avec une absence de la dent controlatérale ; 90% des sites greffés du groupe 1 étaient au maxillaire contre 1 site à la mandibule. L'ensemble des reconstructions ont été faites par ROG, le site mandibulaire de grande étendue (édentement de 33 à 43) ayant été reconstruit avec une ROG associant os allogénique et os autogène (*bone-scrapers*[®]) alors que les autres sites (maxillaires) étaient principalement des ROG de renfort de plus faible étendue (70% en site unitaire, soit 7 sites). Les ROG ont été principalement réalisées à l'aide d'os allogénique (80% des sites, soit 8 sites) et 2 sites avec de l'os xénogène (*bio-oss*[®]) (Tableau 4). Le volume initial moyen était de 778,91 mm³ \pm 703,03 pour le groupe 1 avec un VOI de 255,97 mm³ pour le plus petit site et un volume de 2247,52 mm³ pour le site le plus étendu.

GROUPE 1						
Sites	Sujet	Localisation	Volume osseux initial V_0 (mm ³)	Type de greffe osseuse	Biomatériaux utilisés et quantités	Membranes et clous de fixations
A1	5	33 à 43	2247,52	ROG	1cc d'os allogénique + os autogène (prélevé avec <i>bone scraper</i> ®)	2 membranes résorbables avec 4 clous
A2	3	13	1558,75	ROG	0,5cc Bio-Oss® (xénogène)	1 membrane résorbable avec 2 clous
A3	3	23	1426,25	ROG	0,5cc bio-oss (xénogène)	1 membrane résorbable avec 2 clous
A4	10	12	290,77	ROG	0,5 cc os allogénique	-
A5	10	22	324,18	ROG	0,5 cc os allogénique	-
A6	11	12	373,73	ROG	0,5cc os allogénique	-
A7	1	24 25	582,06	ROG	2cc os allogénique	1 membrane résorbable avec 2 clous
A8	9	21 à 23	374,75	ROG	2cc os allogénique	1 membrane résorbable avec 4 clous
A9	8	12	355,17	ROG	0,5cc os allogénique	-
A10	8	22	255,97	ROG	0,5cc os allogénique	

Tableau 4 : Caractéristique initiales des sites et techniques chirurgicales utilisées pour le groupe 1.

ROG = régénération osseuse guidée

Tableau 5 : Caractéristiques initiales des sites et techniques chirurgicales réalisées pour le groupe 2 ; ROG = Régénération osseuse guidée

GROUPE 2						
Sites	Sujet	Localisation	Volume osseux initial V_0 (mm ³)	Type de greffe osseuse 1	Matériaux utilisés et quantités pour la greffe osseuse 1	Membranes et clous de fixation
B1	1	14	565,87	Sinus lift	1cc os allogénique	-
B2	2	13	270,43	ROG	0,5cc os allogénique	-
B3	2	23	260,46	ROG	0,5cc os allogénique	-
B4	2	42 à 32	242,56	Greffe d'apposition	Os autogène (prélèvement ramique)	-
B5	6	33 34	578,54	ROG	1cc os allogénique	1 membrane résorbable et 4 clous
B6	7	14 15	580,92	Sinus lift et greffe d'apposition	2cc os allogénique et apposition os autogène (prélèvement ramique)	1 membrane résorbable et 2 clous
B7	8	32 à 42	982,48	Greffe d'apposition	Os autogène (prélèvement ramique)	-
B8	7	24 25	628,80	Sinus lift et greffe d'apposition	4cc os allogénique et apposition lame corticale (allogénique)	1 membrane résorbable et 4 clous
B9	3	33 à 43	2302,53	ROG	2 cc os allogénique et autogène avec vis ostéosynthèses	1 membrane résorbable et 2 clous
B10	4	12 à 14	1200,25	Greffe d'apposition	Os autogène (prélèvement ramique) et 1cc os allogénique	1 membrane résorbable et 2 clous
B11	4	22 à 24	1074,28	Greffe d'apposition	Os autogène (prélèvement ramique) et 1cc os allogénique	1 membrane résorbable et 4 clous

Dans le groupe 2, 81% des sites agnésés étaient symétriques (soit 9 sites) (*Tableau 5*)

Concernant la répartition des sites greffés, nous avons relevé 63% de sites au maxillaire (7 sites) contre 37% des sites à la mandibule (4 sites). Les sites greffés étaient globalement plus étendus que ceux du groupe 1. Sur les 11 sites, en première intention, 6 sites ont bénéficié de greffe d'apposition (5 sites sur 6 avec prélèvement ramique et 1 site sur 6 par apposition avec une lame corticale allogène) dont 2 associés à un sinus lift. 3 sites au total ont eu une élévation du plancher sinusien. 4 sites ont été reconstruits par ROG (majoritairement avec de l'os particulaire allogénique) (*Tableau 5*). Le volume initial moyen était de $789,74 \text{ mm}^3 \pm 599,05 \text{ mm}^3$ pour le groupe 2 avec un VOI minimal de $242,56 \text{ mm}^3$ et VOI maximal de $2302,53 \text{ mm}^3$.

2.3. Caractéristiques des sites étudiés après la première reconstruction osseuse

Dans le groupe 1 le volume osseux final moyen était de $924,27 \text{ mm}^3 \pm 720,37 \text{ mm}^3$ avec un volume osseux final (VOF) minimal de $388,53 \text{ mm}^3$ et un VOF maximal de $2504,11 \text{ mm}^3$ (*Tableau 6*). Le délai entre la chirurgie et le CBCT était en moyenne de 5 mois $\pm 3,2$ mois (allant de 3 à 14 mois). Ce délai de 14 mois s'est expliqué par des difficultés à recontacter le sujet durant la période du COVID-19. Le délai moyen entre l'implantation et la mise en charge prothétique était de 7 mois $\pm 4,4$ mois (allant de 4 à 15 mois). Pour 4 sites, un CBCT a été réalisé après mise en charge de l'implant. Ce CBCT a permis de calculer un volume osseux V1bis indiqué dans le tableau 7. Pour 2 sites nous avons ainsi un recul clinique de 3 mois, ainsi qu'un recul clinique de 22 mois pour un site et 27 mois pour un autre. Concernant les complications, une exposition de 4 spires implantaires a été relevée 7 mois après implantation sur 1 site, corrigée par une deuxième ROG pré-prothétique.

Dans le groupe 2, le volume osseux final moyen était de $1719,97 \text{ mm}^3 \pm 892,11 \text{ mm}^3$ avec un VOF minimal de $288,61 \text{ mm}^3$ et un VOF maximal de $3545,10 \text{ mm}^3$ (*Tableau 7*). Les CBCT ont été réalisés en moyenne 4 mois $\pm 0,40$ mois (allant de 4 à 5 mois) après les greffes osseuses. Le délai entre une greffe osseuse et une implantation était en moyenne de 6 mois $\pm 1,08$ mois (allant de 5 à 8 mois) et le délai entre deux greffes osseuses était de 6 mois (réalisées sur 2 sites pour un même sujet donc le délai entre 2 greffes osseuses est identique). La mise en charge (MEC) a été réalisée sur 7 patients avec un délai moyen de 6 mois $\pm 2,03$ mois (allant de 3 à 9 mois).

Pour 2 sites un CBCT a été réalisé 22 mois après la mise en fonction de l'implant. Ce CBCT post-MEC a permis de calculer un volume osseux V3bis correspondant au volume osseux post-MEC des sites B10 et B11 (du sujet 4) ayant bénéficié de 2 greffes osseuses avant une troisième greffe osseuse concomitante à l'implantation (*Figure 14 et Tableau 7*).

Une complication a été notée sur un site avec exposition millimétrique du greffon osseux 2 mois après reconstruction osseuse. Cette complication a été gérée par une antisepsie (nettoyage de la zone à la bétadine) et un débridement de la lésion. La plaie ayant cicatrisée correctement, la MEC prothétique a pu être réalisée dans de bonnes conditions.

GROUPE 1						
Sites	Localisation	Volume osseux après reconstruction osseuse V1 (mm ³)	Délai entre chirurgie et CBCT V1 (mois)	Délai entre implantation et la MEC (mois)	Délai entre mise en charge et le dernier CBCT V1 bis (mois)	Complications
A1	33 à 43	2504,11	14	15	-	Délai long : problème de fournitures
A2	13	1657,66	6	7	-	
A3	23	1531,60	6	7	-	
A4	12	388,53	4	4	-	
A5	22	482,37	4	4	-	
A6	12	576,56	4	6	27	
A7	24 25	664,68	3	10	-	
A8	21 22 23	520,39	5	17	22	Exposition de 4 spires implantaire 7 mois après la greffe osseuse
A9	12	454,40	3	7	3	
A10	22	462,38	5	7	3	

Tableau 6 : Caractéristiques des sites du groupe 1 après intervention chirurgicale.

CBCT= Cone Beam Computed Tomography ; MEC = Mise en charge ; V1 = Volume après reconstruction osseuse ; V1 bis = volume osseux après mise en charge de la prothèse sur implant

GROUPE 2											
Sites	Localisation	VO après GO1 : V1 (mm ³)	Délai entre GO 1 et CBCT (mois)	Délai entre GO 1 puis implant	Délai entre GO 1 et 2	Délai entre GO 2 puis implant (mois)	Nombre GO pré-implantaire	GO per-implantaire	Délai entre implant et MEC	Délai entre MEC et dernier CBCT	Complications
B1	14	1628,88	4	6	-	-	1	Non	6	-	
B2	13	307,36	5	6	-	-	1	Non	-	-	
B3	23	288,61	5	6	-	-	1	Non	-	-	
B4	42 à 32	1902,21	4	7	-	-	1	Non	-	-	
B5	33 34	1085,30	4	5	-	-	1	Non	3	-	
B6	14 15	1299,52	4	6	-	-	1	Non	7	-	
B7	32-42	1414,79	4	6	-	-	1	Non	4	-	
B8	24 25	1857,66	4	7	-	-	1	Oui	9	-	Exposition du greffon
B9	33 à 43	3545,10	4	6	-	-	1	Oui	-	-	
B10	12 14	2050,02	4	-	6	8	2	Oui	7	22	
B11	22 24	<u>1820,23</u>	4	-	6	8	2	Oui	7	22	

Tableau 7 : Caractéristiques de sites du groupe 2 après reconstruction osseuse.

GO = Greffe osseuse ; CBCT = Cone Beam Computed Tomography ; MEC = Mise en charge ; V1 = Volume après reconstruction osseuse

2.4. Gain osseux obtenu pour chaque site

Le gain osseux a été obtenu en calculant la différence entre le volume osseux après la première reconstruction osseuse (V_1) et le volume osseux initial (V_0).

Dans le groupe 1, le gain osseux δ^+ était en moyenne de $135,36 \text{ mm}^3 \pm 56,91 \text{ mm}^3$ (allant de $82,62 \text{ mm}^3$ à $256,59 \text{ mm}^3$). Dans le groupe 2, le gain osseux δ^+ était en moyenne de $733,87 \text{ mm}^3 \pm 527,02 \text{ mm}^3$ (allant de $28,15 \text{ mm}^3$ à $1659,65 \text{ mm}^3$) (*Tableau 8*).

2.5. Perte osseuse de certains sites

Dans le groupe 1, il a été possible de calculer le δ^- sur 4 sites. Sur deux sites unitaires (sites A9 et A10 du sujet 8) 3 mois après la MEC, une perte moyenne de $98,10 \text{ mm}^3 \pm 26,90 \text{ mm}^3$ avait été notée (le maximum étant de $117,13 \text{ mm}^3$ et le minimum de $79,08 \text{ mm}^3$). Un site (A8) a présenté une perte osseuse de $6,8 \text{ mm}^3$ après 22 mois de MEC et un dernier site unitaire (A6) a eu une perte osseuse de $59,74 \text{ mm}^3$, 27 mois après MEC.

Dans le groupe 2, il a été possible de calculer le δ^- sur deux sites (B10 et B11, chez le sujet 4). Un recul clinique de 22 mois, a permis de calculer un δ^- moyen de $232,49 \text{ mm}^3 \pm 73,41 \text{ mm}^3$ (allant de $122,23$ à $342,75 \text{ mm}^3$) (*Tableau 9*). La perte osseuse sur ces 2 sites était respectivement de 5,96% et de 18,83%.

Les patient(e)s n'ayant pas tous été radiographié(e)s après la pose d'implant, nous n'avons, de ce fait, pas toutes les informations disponibles pour calculer d'éventuelles pertes osseuses δ^- pour l'ensemble des sites.

Groupe 1	Site	A1	A2	A3	A4	A5	A6	A7	A8	A9	A10	
	Localisation	33 à 43	13	23	12	22	12	24 25	21 22 23	12	22	
	V₀ (mm³)	2247,52	1558,75	1426,25	290,77	324,18	373,73	582,06	374,75	355,17	255,97	
	V1 (mm³)	2504,11	1657,66	1531,60	388,53	482,37	576,56	664,68	520,39	454,40	462,38	
	Gain osseux ∂+	256,59	98,91	105,34	97,76	158,19	102,92	82,62	145,64	99,23	206,41	
Groupe 2	Site	B1	B2	B3	B4	B5	B6	B7	B8	B9	B10	B11
	Localisation	14	13	23	32 à 42	33 34	14 15	32 à 42	24 25	33 à 43	12 14	22 24
	V₀ (mm³)	565,87	270,43	260,46	242,56	578,54	580,92	982,48	628,80	2302,53	1200,25	1074,28
	V1 (mm³)	1628,88	307,36	288,61	1902,21	1085,30	1299,52	1414,79	1857,66	3545,10	2050,02	1820,23
	Gain osseux ∂+	1063,01	36,93	28,15	1659,65	506,76	718,60	432,31	1228,86	1242,57	849,77	745,95

Tableau 8 : Gain osseux obtenus pour chaque site après reconstruction osseuse

V₀ = Volume osseux initial ; V₁ = Volume osseux après reconstruction osseuse

Groupe 1	Site	A1	A2	A3	A4	A5	A6	A7	A8	A9	A10	
	Localisation	33 à 43	13	23	12	22	12	24 25	21 22 23	12	22	
	V ₀ (mm ³)	2247,52	1558,75	1426,25	290,77	324,18	373,73	582,06	374,75	355,17	255,97	
	V1 (mm ³)	2504,11	1657,66	1531,60	388,53	482,37	576,56	664,68	520,39	454,40	462,38	
	Perte osseuse ∂-	-	-	-	-	-	59,74	-	6,8	79,08	117,13	
Groupe 2	Site	B1	B2	B3	B4	B5	B6	B7	B8	B9	B0	B11
	Localisation	14	13	23	32 à 42	33 34	14 15	32 à 42	24 25	33 à 43	12 14	22 24
	V ₀ (mm ³)	565,87	270,43	260,46	242,56	578,54	580,92	982,48	628,80	2302,53	1200,25	1074,28
	V1 (mm ³)	1628,88	307,36	288,61	1902,21	1085,30	1299,52	1414,79	1857,66	3545,10	2050,02	1820,23
	Perte osseuse ∂-	-	-	-	-	-	-	-	-	-	122,23	342,75

Tableau 9 : Perte osseuse après mise en charge implantaire.

V₀ = Volume osseux initial ; V₁ = Volume osseux après reconstruction osseuse

3. Discussion

Ce travail nous a permis d'évaluer le gain osseux radiologique avant et après reconstruction osseuse chez les patient(e)s atteint(e)s d'agénésies multiples suivi(e)s au sein de l'UCOR puis d'évaluer par la suite le maintien du volume osseux après mise en fonction de la prothèse chez certain(e)s patient(e)s. Par ailleurs, un état des lieux de leur prise en charge chirurgico-prothétique a pu être effectué en dressant un bilan des protocoles de reconstruction osseuse pré-implantaire chez les patient(e)s oligodontes.

Notre étude présente certaines limites liées notamment à la faible représentativité de la population. En effet, le ratio homme/femme (1 homme contre 10 femmes) n'est pas représentatif de la réalité. Une étude de Brook et al. [27] montre néanmoins une différence significative entre hommes et femmes concernant les agénésies dentaires, avec une majoration des hypodonties chez les femmes, 5,7% des femmes contre 3,1% des hommes dans son étude composée de 1115 patient(e)s. Les études de Berström et al. [28], Egermark-Eriksson and Lind [29] montrent également une différence significative entre les femmes avec une prévalence des hypodonties supérieure chez les femmes. Dans notre étude, la majorité des patient(e)s étaient atteints d'agénésies multiples syndromiques avec une mutation majoritaire du gène WNT10A (45% de notre population). Selon l'étude de Clauss et al. et de Plaisancié et al. et d'après le Protocole National De Soins (PNSD) 2021, ce gène WNT10A est majoritairement impliqué [30] [12]. L'étude de Plaisancié et al. [12] montre en effet que 44% des oligodonties avec dysplasie ectodermique sont associées à une mutation du gène WNT10A. Néanmoins de nombreux gènes tels que EDA, MSX1, PAX9, IRF6 peuvent être impliqués dans les deux cas d'oligodontie, isolées ou syndromiques, d'où l'importance de rechercher des signes cliniques extra-buccaux associés (*panels GenoDENT*: cf annexe 2). 76% des patient(e)s de notre échantillon présentent des agénésies dentaires d'origine syndromique contre 24% d'agénésies isolées. En réalité, la prévalence de l'oligodontie isolée est inconnue, aucun article ne recense la prévalence des oligodonties syndromiques et isolées. Dans les populations européennes (atteintes d'agénésies dentaires multiples), la prévalence estimée de l'oligodontie syndromique et non-syndromique varie entre 1/625 à 1/1 250 selon les études [31]. Il existe certainement un biais de recrutement dans notre étude car notre population est issue du centre de référence en maladies rare du CHU de Toulouse. Cette population est donc probablement plus atteinte

d'agénésies syndromiques que dans le reste de la population générale. Les patient(e)s atteint(e)s d'agénésies dentaires isolées de petites étendues sont certainement plus à même d'être suivi(e)s dans le libéral qu'en centre hospitalo-universitaire.

Concernant la méthodologie de calcul de volumes osseux, la réalisation de leurs segmentations sur le logiciel *3D Slicer*[®], bien que se voulant le plus précis et reproductible possible dans son calcul, présente néanmoins des limites. La délimitation du volume osseux étant manuelle et opérateur dépendante, elle n'est donc pas aussi précise qu'une superposition de volume avec un ordinateur calculant le différentiel entre ces 2 volumes osseux. Afin de palier le plus possible à cette limite, une calibration a été effectuée sur une patiente en effectuant la segmentation trois fois de suite afin d'obtenir 3 valeurs jugées suffisamment proches pour valider la reproductibilité de la méthode de segmentation, comme indiquée dans la méthodologie. D'autres logiciels de comparaison des volumes osseux existent mais nécessitent une similarité absolue des CBCT avant et après reconstruction osseuse concernant les champs et zone d'intérêt afin de pouvoir les superposer de manière fiable. Des radiographies tridimensionnelles identiques, réalisées avant et après reconstruction osseuse, seraient donc à mettre en place dans une future étude afin d'obtenir un différentiel volumique précis et exact pour le calcul des gains ou des pertes osseuses.

Concernant la répartition des patient(e)s au sein des groupe 1 (reconstruction osseuse concomitante à l'implantation) et groupe 2 (implantation après reconstruction osseuse préalable), il est noté que 4 sujets (5,9,10,11) appartenaient uniquement au groupe 1, leur moyenne d'âge au moment de la RCP était de 37 ans (± 10 ans) ; 4 sujets (2,4,6,7) appartenaient uniquement au groupe 2, leur moyenne d'âge était de 21,5 ans (± 7 ans) au moment de la RCP ; 3 sujets appartenaient à la fois au groupe 1 et 2 (1,3,8) avec une moyenne d'âge de 35 ans ($\pm 21,07$ ans). Les reconstructions osseuses au sein du groupe 2 étant globalement plus étendues, avec des agénésies dentaires importantes (13 agénésies dentaires (± 8) dans le groupe 2), nous pouvons supposer que l'atrophie osseuse associée nécessitait une prise en charge plus précoce afin de rétablir les préjudices esthétiques et fonctionnels associées, expliquant ainsi le plus jeune âge des patient(e)s de ce groupe. Il peut être supposé que les patient(e)s du groupe 1 nécessitant de plus faibles reconstructions osseuses du fait d'un moins grand nombre d'agénésies dentaires (4 agénésies (± 5)), ont bénéficié d'une thérapeutique jugée satisfaisante (esthétiquement et fonctionnellement) dans l'attente d'une thérapeutique implanto-prothétique plus tardive.

Le gain osseux Δ obtenu dans notre étude était en moyenne de $135,36 \text{ mm}^3 \pm 56,91 \text{ mm}^3$ dans le groupe 1 et de $733,87 \text{ mm}^3 \pm 527,01 \text{ mm}^3$ dans le groupe 2. Cette différence volumique

plus importante pour le groupe 2 est attendue car ce dernier présentait des sites globalement plus étendus, nécessitant des reconstructions osseuses plus importantes. En effet, le volume osseux initial (V_0) du groupe 1 était de $778,91 \text{ mm}^3 \pm 703,03 \text{ mm}^3$ contre $789,74 \text{ mm}^3 \pm 599,05 \text{ mm}^3$ pour le groupe 2. Dans le groupe 2, les sites ont nécessité plusieurs greffes osseuses afin d'être réhabilités prophétiquement par la suite alors que dans le groupe 1 le(s) implant(s) a/ont été posé(s) de manière concomitante à la chirurgie osseuse.

On peut remarquer que les greffes osseuses sur les sites unitaires ou de petite étendue (2 dents adjacentes) ont été réalisées par technique de régénération osseuse guidée majoritairement avec de l'os allogénique (6 sites sur 10 dans le groupe 1 et 3 sites sur 11 dans le groupe 2) ou de l'os xénogène (2 sites sur 10 dans le groupe 1). Les autres sites de petite étendue (deux dents adjacentes) du groupe 2 ont été reconstruits par technique de *sinus lift* par voie latérale avec de l'os allogénique afin de gagner en hauteur osseuse (3 sites sur 11) à laquelle il a été ajouté une greffe d'apposition afin de gagner en largeur osseuse (soit une lame d'os corticale allogénique, soit un greffon autogène d'origine ramique). Les sites de plus large étendue (3 dents ou plus) ont été reconstruits en mélangeant de l'os allogène avec de l'os autogène sur 1 site dans le groupe 1 (par ROG) et 3 sites dans le groupe 2 (1 site par ROG et deux sites par greffe d'apposition avec prélèvement ramique). Les 2 derniers sites de grande étendue du groupe 2 ont été réhabilités par apposition d'un greffon ramique autogène. Il est communément admis, et comme le montre l'étude de Rocchietta et al, que l'os autogène est un matériau de choix pour les greffes osseuses, notamment de grandes étendues, du fait de sa biocompatibilité, de ses propriétés ostéoinductrices et ostéoconductrices [32]. Néanmoins la quantité d'os autogène disponible est limitée et cette technique reste relativement invasive pour les patient(e)s [33]. D'autres substituts osseux (os allogène, xénogène ou mixte), permettent d'obtenir de bons résultats également dans certaines situations chez le sujet oligodonte, évitant ainsi des prélèvements intra-oraux et diminuent de ce fait la morbidité liée à ces chirurgies [34]. L'utilisation de la technique de ROG sur les sites de faibles étendues est fréquente dans notre service. La revue systématique de Chatelet et al. montre que le taux de survie implantaire avec ce type de greffe osseuse est de 98,5% à 33 mois en moyenne (allant de 7 mois à 60 mois) [35]. Plusieurs études montrent que les ROG permettent de gagner un volume osseux vertical et horizontal satisfaisant en utilisant une membrane résorbable ou non [36][37]. Néanmoins, la majorité de ces études portent essentiellement sur des ROG per-implantaires et peu sur les ROG pré-implantaires. Des études complémentaires seraient intéressantes afin d'étudier les ROG pré-implantaires chez les patient(e)s atteints(e) d'agénésies multiples. Concernant les élévations

du plancher sinusien par abord latéral, de l'os allogénique est majoritairement utilisé ici, plus ou moins associé à des particules d'os autogène. L'étude de Gerry et al. a rapporté que la survie des implants (à 5 ans étant comparable dans les régions sous sinusiennes reconstruites avec un mélange d'os autogène et d'os allogène ou simplement avec du substitut allogénique seul [38]. Nous remarquons néanmoins que quel que soit l'étendue du site, le nombre de greffes osseuses, la technique ou les biomatériaux utilisés, l'implantation a toujours été possible. Les méthodes de reconstructions osseuses sont donc efficaces pour pouvoir réaliser les réhabilitations implanto-prothétiques dans de bonnes conditions.

Dans notre étude, pour certain(e)s patient(s), une radiographie tridimensionnelle a été réalisée après mise en charge (MEC) de la prothèse sur implant, nous permettant de ce fait de calculer une éventuelle perte osseuse depuis la mise en fonction implantaire (∂ -). Par exemple, dans le groupe 1 et dans le groupe 2, nous avons, pour certains sites, un recul clinique de 22 mois après MEC. Sur un site du groupe 1, nous obtenons une perte osseuse de 6,8 mm³ contre 232,49 mm³ \pm 155,93 mm³ sur deux sites du groupe 2. Cette différence volumique est expliquée par le fait que les sites du groupe 2, nécessitant un gain osseux majoré afin d'être réhabilités, ont dû être reconstruits plus largement. Les pertes osseuses du groupe 2 reconstruits par os autogène dans notre étude sont en moyenne de 12,39%. Ces valeurs rejoignent les valeurs retrouvées dans la littérature pour lesquelles sont notées une perte osseuse moyenne de 5 à 28% à 3ans après greffe osseuse autogène d'apposition [39]. Ces pertes osseuses peuvent être expliquées par différents facteurs comme la difficulté de réalisation de ces greffes osseuses (malgré l'expérience des chirurgiens) sur des sites relativement complexes car très corticalisés et peu vascularisés, la pression du périoste sur une greffe osseuse en sur-contour lors d'une ROG, une zone greffée stimulée en phase de cicatrisation, et ce, même si la mise en fonction des prothèses sur implant permettrait de diminuer le taux de résorption du fait du remodelage osseux fonctionnel [43]. La résorption d'une partie de la masse osseuse greffée est fréquente, comme le montre la littérature ([40], [41], [42],[43]), le taux de réussite des greffes osseuses d'apposition semble varier de 80 à 100%. Les résultats obtenus au cours de l'étude de Baccar [41] montre que la résorption osseuse partielle est inférieure à 25% du volume total du greffon observée dans 3 cas sur 36 patients ayant bénéficié d'une greffe d'apposition à visée pré-implantaire entre 1998 et 2002 (avec un recul clinique de 42 mois (de 15 à 60 mois), le pourcentage de réussite de la greffe est estimé dans cette étude à 94,5%. Les résultats sont proches de ceux de Bahat en 2001 [42] qui, à partir de 25 greffes osseuses, affiche un taux de réussite de 96% avec deux cas de résorption partielle sans répercussion sur l'insertion des

implants et une survie implantaire de 95,5% [42] et [41]. Widmark (en 1997) a évalué cette résorption à 25% du volume total de la greffe lors de la mise en place des implants à 4 mois post opératoires.

Concernant les délais parfois relativement longs entre la chirurgie osseuse et/ou implantaire et le CBCT de contrôle V1 puis la mise en fonction de la prothèse implanto-portée, plusieurs évènements successifs ont pu expliquer le retard pris lors de ces différentes étapes. En effet, il a été noté une large diminution de l'activité au sein du service d'odontologie lors de l'épisode du COVID-19 entre mai 2020 et mai 2021. Une période de travaux importants dans le service d'odontologie (de juillet 2021 à juin 2022) puis des problèmes de fournitures avec des reliquats de certains accastillages implantaires lors de la période de guerre en Ukraine (à partir de février 2022).

La majorité des patient(e)s inclus(e)s dans l'étude ont été traité(e)s après 2019, montrant ainsi une évolution de la prise en charge des patients dans le service depuis la création de l'UCOR en 2016. Néanmoins, la prise en charge des patient(e)s atteint(e)s d'agénésies multiples nécessiterait d'établir un protocole rigoureux en systématisant les bilans pré-implantaires, les radiographies tridimensionnelles afin que ces dernières soient réalisées dans des conditions identiques avant et après reconstruction osseuse (champs d'acquisition, définition etc.), et en établissant des délais fixes entre chirurgies osseuses et/ou implantaires ainsi que les CBCT.

Conclusion

Cette étude a permis de dresser ainsi un bilan précis des protocoles de reconstruction osseuse pré-implantaire chez les patient(e)s avec oligodontie pris(e)s en charge au sein de l'UCOR, en identifiant les types de patient(e)s traité(e)s (âge au moment des RCP et des CBCT, sexe...), la méthodologie de chirurgie utilisée (type de greffes, biomatériaux et quantités de matériaux utilisées) ainsi que les délais entre les chirurgies, les CBCT et les mise en charge prothétique. Par ailleurs, cette étude a permis d'évaluer le gain osseux obtenu ainsi que son maintien après mise en fonction de la prothèse sur implant et donc le succès des chirurgies effectuées au sein de notre service. Finalement, quel qu'ait été le parcours chirurgical de chaque patient(e), tous(tes) ont pu être réhabilité(e)s prophétiquement, ce qui répond à la mission de l'UCOR.

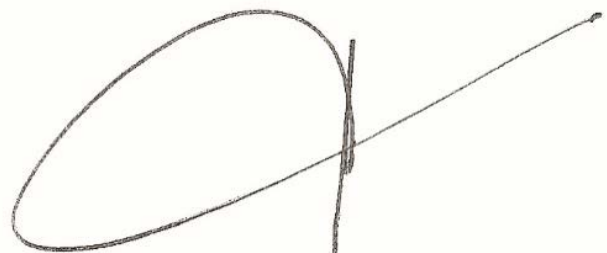
Il serait toutefois intéressant de réaliser un protocole de prise en charge chirurgicale pour les patients atteints d'agénésies dentaires multiples au sein de l'UCOR afin d'améliorer la prise en charge de ces patient(e)s, qui demandent une coordination particulièrement efficace entre les différentes spécialités impliquées.

La Directrice de thèse

Dr Alexia VINEL

Le Président du jury

Pr Frédéric VAYSSE



ANNEXES

1. Annexe 1 : dossier ALD 31 et formulaire d'aide au remplissage

Formulaire aide remplissage ALD pages 49 et 50:

<https://www.coover.fr/modeles/formulaire/formulaire-ald>

2. Annexe 2 : coordonnées des centres de références et de compétences en maladies rares :

Centres de Références		
CRMR Strasbourg	Hôpitaux Universitaires de Strasbourg - Hôpital Civil Pôle de Médecine et de Chirurgie bucco-dentaires 1 Place de l'Hôpital B.P. 426 67091 Strasbourg Cedex	Pr Agnès Bloch-Zupan
CRMR Paris Rothschild	Assistance Publique des Hôpitaux de Paris Hôpital Rothschild Service d'Odontologie 5 Rue Santerre 75012 Paris	Pr Murielle DE LA DURE MOLLA
CRMR Toulouse	CHU de Toulouse – Hôpital Rangueil Service d'Odontologie et traitement dentaire 3 Chemin des Maraîchers 31400 Toulouse	Pr Frédéric VAYSSE
CRMR Marseille	Assistance Publique des Hôpitaux de Marseille Hôpital de La Timone Enfants – Centre de soins dentaires Service d'Odontologie 264 Rue Saint-Pierre 13385 Marseille	Pr Corinne Tardieu

Centres de Compétences		
CCMR Angoulême	Centre Hospitalier d'Angoulême Service d'Odontologie Rond-point de Girac CS 55015 Saint-Michel 16959 Angoulême	Dr Frédérique Dhalluin Olive
CCMR Besançon	CHRU de Besançon – Hôpital Jean Minjoz Service de Chirurgie Maxillo-Faciale, Stomatologie et Odontologie Hospitalière UF de consultations et soins dentaires	Dr Edouard Euvrard

	3 Boulevard Alexandre Fleming 25030 Besançon	
CCMR Bordeaux	CHU de Bordeaux – Hôpital Pellegrin - Hôpital des Enfants Service d'Odontologie et Santé Buccale Place Amélie Raba Léon 33000 Bordeaux	Pr Marie-José BOILEAU
CCMR Dijon	CHU de Dijon Bourgogne - Hôpital François Mitterrand Service d'Odontologie – Médecine bucco-dentaire – chirurgie orale - implantologie 2 Boulevard Maréchal de Lattre de Tassigny 21079 Dijon Cedex	Pr Victorin Ahossi
CCMR Lyon	Hospices Civils de Lyon Groupement Centre Pôle d'Activités Médicales d'Odontologie Centre de soins Dentaires 6-8 Place Depéret 69365 Lyon Cedex 07	Pr Jean-Jacques Morrier
CCMR Montpellier	Centre de Soins d'Enseignement et de Recherche Dentaires 549 Avenue du Professeur Louis Viala 34295 Montpellier cedex 5	Dr Estelle Moulis
CCMR Nancy	CHRU de Nancy - Hôpitaux de Brabois Bâtiment principal, niveau entresol Service d'Odontologie Rue du Morvan 54511 Vandœuvre-lès-Nancy	Dr Magali Hernandez
CCMR Nantes	CHU de Nantes – Hôtel Dieu Service d'Odontologie Conservatrice et Pédiatrique 1 Place Alexis-Ricordeau 44000 Nantes	Pr Serena Lopez
CCMR Paris Creteil	Assistance Publique des Hôpitaux de Paris Hôpitaux Universitaires Henri Mondor – Hôpital Henri Mondor Service de Médecine Bucco-Dentaire et Chirurgie Orale 51 Avenue du Maréchal de Lattre de Tassigny 94010 Créteil Cedex	Pr Bruno Gogly
CCMR Paris Pitié Salpêtrière	Assistance Publique des Hôpitaux de Paris Groupe Hospitalier Pitié-Salpêtrière Service d'odontologie 47-83 Boulevard de l'Hôpital 75013 Paris	Pr Vianney Descroix
CCMR Reims	CHU de Reims - Hôpital Maison Blanche Pôle de Médecine Bucco-Dentaire 45 Rue Cognacq-Jay 51092 Reims Cedex	Dr Marie-Paule Gellé

CCMR Rennes	CHU de Rennes - Hôpital Pontchaillou Centre de soins dentaires - service d'odontologie 2 rue Henri Le Guilloux 35033 Rennes Cedex	Pr Jean-Louis Sixou
CCMR Rouen	CHU de Rouen - Hôpital Saint-Julien Service d'Odontologie Rue Guillaume Lecointe 76140 Le Petit-Quevilly	Dr Hervé Moizan
CCMR Tours	CHRU de Tours - Hôpital Clocheville Service de Chirurgie Maxillo Faciale et Plastique de la Face et Stomatologie 49 Boulevard Béranger 37044 Tours cedex	Pr Boris Laure

3. Annexe 3 : procédure de réhabilitation dans les agénésies dentaires multiples (CRMR)



Pr Frédéric Vaysse
vaysse.f@chu-toulouse.fr

Dr Luc Raynaldy

Secrétariat, RDV
odonto.sec@chu-toulouse.fr
05 61 32 20 30

Centre de Compétence Maladies Orales Rares Procédure de réhabilitation dans les agénésies dentaires multiples

Le diagnostic d'oligodontie doit être validé par une consultation génétique :
Dr Chassaing et Pr Bailleul, service de génétique médicale de Purpan : 05 61 77 90 51

Phase pédiatrique	Objectifs fonctionnels et esthétiques : <ul style="list-style-type: none">- Prothèses pédiatriques possibles à partir de 2-3 ans dans les situations sévères- Interception des malocclusions (articulé inversé, déficit de croissance, fermeture de diastèmes, ...)- Prothèses de maintien des espaces et à visée esthétique et fonctionnelle.- Coronoplasties composites
Réunion de concertation pluridisciplinaire	Entre 12 et 15 ans, une RCP est organisée pour définir le projet prothétique final. Idéalement, tous les praticiens qui prennent en charge l'enfant devraient être présents lors de cette réunion.
Phase orthodontique	<ul style="list-style-type: none">- Tient compte du projet prothétique +/- implantaire déterminé lors de la RCP- Une période de maintien du résultat est nécessaire avant la réhabilitation
Phase de réhabilitation	<ul style="list-style-type: none">- Demande d'ALD31 adulte et entente préalable pour les implants (soumis à conditions)- A partir de 20-25 ans en fonction des situations, en fonction de la croissance et de la localisation des implants.- Il est possible qu'une reprise orthodontique soit nécessaire avant la réhabilitation

4. Annexe 4 : liste des gènes du panel GenoDENT :

Panel GenoDENT			
<i>ADAMTS2</i>	<i>EYA1</i>	<i>KDM6A</i>	<i>PVRL1</i>
<i>ANTXR1</i>	<i>FGF10</i>	<i>KMT2D</i>	<i>RECQL4</i>
<i>AXIN2</i>	<i>FGFR1</i>	<i>KREMEN1</i>	<i>RSK2</i>
<i>BCOR</i>	<i>FGFR2</i>	<i>LEF1</i>	<i>RUNX2</i>
<i>BMP4</i>	<i>FGFR3</i>	<i>LRP6</i>	<i>SATB2</i>
<i>CREBBP</i>	<i>FLNB</i>	<i>LTBP3</i>	<i>SHH</i>
<i>CTNNB1</i>	<i>FOXC1</i>	<i>MKKS</i>	<i>SMOC2</i>
<i>CXORF5</i>	<i>GJA1</i>	<i>MSX1</i>	<i>TBX3</i>
<i>DKK1</i>	<i>GLI3</i>	<i>NSD1</i>	<i>TCOF1</i>
<i>DSP</i>	<i>GREM2</i>	<i>OFD1</i>	<i>TFAP2B</i>
<i>DTDST</i>	<i>GRHL2</i>	<i>PAX9</i>	<i>TP63</i>
<i>EDA</i>	<i>HOXB1</i>	<i>PHGDH</i>	<i>TSPEAR</i>
<i>EDAR</i>	<i>IKBKG</i>	<i>PITX2</i>	<i>UBR1</i>
<i>EDARADD</i>	<i>IKKγ</i>	<i>POLR3A</i>	<i>WNT10A</i>
<i>EVC</i>	<i>IRF6</i>	<i>POLR3B</i>	<i>WNT10B</i>
<i>EVC2</i>	<i>JAG1</i>	<i>PORCN</i>	

FIGURES

- Figure 1: Patient (35ans) atteint d'oligodontie (ici 18 agénésies dentaires). A gauche : Vue endobuccale des arcades maxillaire et mandibulaire. A droite : orthopantomogramme UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse 14
- Figure 2 : Patient (12 ans) atteint d'anodontie. A gauche : Vue endobuccale des arcades maxillaire et mandibulaire. A droite : orthopantomogramme 14
- Figure 3 : Patients atteints de dysplasie ectodermique hypohidrotique< pour lesquels nous notons une hypotrichose (cheveux épars ainsi qu'un affaissement de l'étage facial inférieur du fait d'oligodontie. 16
- Figure 4 : Radiographies (orthopantomogramme et téléradiographie de profil à gauche) et photographie (à droite) illustrant les anomalies squelettiques, alvéolaires et des tissus mous associés aux agénésies multiples. On remarque une diminution de l'étage facial inférieur avec un retro-chéilie et un sillon labio-mentonnier marqué. UCOR, service de médecine Bucco-dentaire, CHU de Toulouse. 17
- Figure 5 : Schéma de prise en charge des patients avec agénésies multiples dans le service d'Odontologie du CHU de Toulouse 18
- Figure 6 : Crête mandibulaire en aspect "lame de couteau" chez un patient atteint d'agénésies multiples. A gauche : photographie intrabuccale lors de la mise en place complexe d'un implant mandibulaire. A droite : Coupes radiologiques de CBCT illustrant la finesse de la crête. 19
- Figure 7 : Diagramme de flux représentant l'inclusion des patients dans l'étude. 23
- Figure 8 : Coupes axiales d'un CBCT maxillaire. A gauche : situation initiale. A droite : après implantation et greffe osseuse Les traits orange délimitent la zone d'intérêt étudiée, ici située entre 21 et 24. UCOR, 25
- Figure 9 : Visualisation du fichier DICOM sur le logiciel 3D Slicer. La fenêtre rouge : coupe axiale ; fenêtre verte : coupe frontale; fenêtre jaune : coupe sagittale ; la fenetre bleue correspond à la visualisation tridimensionnelle de notre futur volume osseux segmenté..... 27
- Figure 10 : Seuillage de gris afin de sélectionner notre volume osseux d'intérêt sur le logiciel « 3D Slicer » : Flèches orange : repères axiaux ; Crochets jaune : repères sagittaux entre 13 et 16 ; lignes vertes : repères frontaux situés entre les parois osseuses 27

Figure 11: Sélection du volume osseux V_1 selon les repères anatomiques suivants : -
 Axialement : partie la plus coronaire de la crête osseuse jusqu'à la dernière coupe sur laquelle nous voyons l'apex de la racine palatine de 16 et de 13 - Sagittalement : sélection du volume osseux entre 13 et 16 Frontalement : volume osseux entre les apros vestibulaires et palatine de la zone d'intérêt. Haut à droite : visualisation du volume osseux 3D V_0 Patiente de l'UCOR
 28

Figure 12 : Sélection et segmentation du volume osseux V_1 29

Figure 13: sélection des volumes osseux d'intérêts V_0 (à gauche) et V_1 (à droite) sur le logiciel 3D Slicer..... 29

Figure 14 : Frise chronologique de prise en charge chirurgicale des sujets du Groupe 1 34

Figure 15 : Frise chronologique de prise en charge chirurgicale des sujets du Groupe 2 34

TABLEAUX

Tableau 1 : Répartition des sites étudiés dans les groupes 1 et 2.	31
Tableau 2 : caractéristiques de la population étudiée.	33
Tableau 3 : Répartition des sujets et des sites au sein des groupes 1 et/ou 2	35
Tableau 4 : Caractéristique initiales des sites et techniques chirurgicales utilisées pour le groupe 1.	36
Tableau 5 : Caractéristiques initiales des sites et techniques chirurgicales réalisées pour le groupe 2 ; ROG = Régénération osseuse guidée.....	37
Tableau 6 : Caractéristiques des sites du groupe 1 après intervention chirurgicale.	40
Tableau 7 : Caractéristiques de sites du groupe 2 après reconstruction osseuse.....	41
Tableau 8 : Gain osseux obtenus pour chaque site après reconstruction osseuse	43
Tableau 9 : Perte osseuse après mise en charge implantaire.	44

BIBLIOGRAPHIE

- [1] A. H. Al-Ani, J. S. Antoun, W. M. Thomson, T. R. Merriman, et M. Farella, « Hypodontia: An Update on Its Etiology, Classification, and Clinical Management », *BioMed Res. Int.*, vol. 2017, p. 9378325, 2017, doi: 10.1155/2017/9378325.
- [2] P. J. De Coster, L. A. Marks, L. C. Martens, et A. Huysseune, « Dental agenesis: genetic and clinical perspectives », *J. Oral Pathol. Med.*, vol. 38, n° 1, p. 1-17, 2009, doi: 10.1111/j.1600-0714.2008.00699.x.
- [3] J. Breeze, M. S. Dover, et R. W. Williams, « Contemporary surgical management of hypodontia », *Br. J. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 55, n° 5, p. 454-460, juin 2017, doi: 10.1016/j.bjoms.2017.03.013.
- [4] K. Durey, P. Cook, et M. Chan, « The management of severe hypodontia. Part 1: considerations and conventional restorative options », *Br. Dent. J.*, vol. 216, n° 1, Art. n° 1, janv. 2014, doi: 10.1038/sj.bdj.2013.1236.
- [5] R. Danan, « Prise en charge des agénésies dentaires multiples chez l'enfant », 1993.
- [6] K. Durey, L. Carter, et M. Chan, « The management of severe hypodontia. Part 2: bone augmentation and the provision of implant supported prostheses », *Br. Dent. J.*, vol. 216, n° 2, Art. n° 2, janv. 2014, doi: 10.1038/sj.bdj.2014.5.
- [7] P. Nieminen, « Genetic basis of tooth agenesis », *J. Exp. Zoolog. B Mol. Dev. Evol.*, vol. 312B, n° 4, p. 320-342, juin 2009, doi: 10.1002/jez.b.21277.
- [8] B. J. Polder, M. A. Van't Hof, F. P. G. M. Van der Linden, et A. M. Kuijpers-Jagtman, « A meta-analysis of the prevalence of dental agenesis of permanent teeth », *Community Dent. Oral Epidemiol.*, vol. 32, n° 3, p. 217-226, juin 2004, doi: 10.1111/j.1600-0528.2004.00158.x.
- [9] M. de La Dure-Molla *et al.*, « Elements of morphology: Standard terminology for the teeth and classifying genetic dental disorders », *Am. J. Med. Genet. A.*, vol. 179, n° 10, p. 1913-1981, 2019, doi: 10.1002/ajmg.a.61316.
- [10] H. Kapadia, G. Mues, et R. D'Souza, « Genes affecting tooth morphogenesis », *Orthod. Craniofac. Res.*, vol. 10, n° 4, p. 237-244, nov. 2007, doi: 10.1111/j.1601-6343.2007.00407.x.
- [11] « Entry Search - oligodontia syndrom - OMIM ». Consulté le: 26 juillet 2023. [En ligne]. Disponible sur: https://www.omim.org/search?index=entry&start=1&limit=10&sort=score+desc%2C+prefix_

sort+desc&search=oligodontia+syndrom

[12] J. Plaisancié *et al.*, « Mutations in WNT10A are frequently involved in oligodontia associated with minor signs of ectodermal dysplasia », *Am. J. Med. Genet. A.*, vol. 161A, n° 4, p. 671-678, avr. 2013, doi: 10.1002/ajmg.a.35747.

[13] T. Rey *et al.*, « Protocol GenoDENT: Implementation of a New NGS Panel for Molecular Diagnosis of Genetic Disorders with Orofacial Involvement », in *Odontogenesis*, vol. 1922, P. Papagerakis, Éd., in *Methods in Molecular Biology*, vol. 1922. , New York, NY: Springer New York, 2019, p. 407-452. doi: 10.1007/978-1-4939-9012-2_36.

[14] A. S. Rodrigues *et al.*, « Is dental agenesis associated with craniofacial morphology pattern? A systematic review and meta-analysis », *Eur. J. Orthod.*, vol. 42, n° 5, p. 534-543, nov. 2020, doi: 10.1093/ejo/cjz087.

[15] A. S. Rodrigues *et al.*, « Association between craniofacial morphological patterns and tooth agenesis-related genes », *Prog. Orthod.*, vol. 21, p. 9, avr. 2020, doi: 10.1186/s40510-020-00309-5.

[16] J. Ferri, P.-J. Stoelinga, J.-I. Cawood, J.-F. Tulasne, A.-R. Paraque, et J.-F. Andréani, « Forum chirurgie préprothétique: un cas d'oligodontie », *Rev. Stomatol. Chir. Maxillofac.*, vol. 108, n° 1, p. 71-79, févr. 2007, doi: 10.1016/j.stomax.2006.11.003.

[17] J. R. Herrera-Atoche *et al.*, « Growth differences in patients with dental agenesis, how its location impacts facial morphology », *J. Dent. Sci.*, vol. 15, n° 3, p. 336-344, sept. 2020, doi: 10.1016/j.jds.2020.03.006.

[18] L. Schropp, A. Wenzel, L. Kostopoulos, et T. Karring, « Bone healing and soft tissue contour changes following single-tooth extraction: A clinical and radiographic 12-month prospective study », *Int. J. Periodontics Restorative Dent.*, vol. 23, p. 313-23, sept. 2003.

[19] K. Nham, S. Toupenay, D. A. Vuong, N. Samee, B. Fournier, et S. Kerner, « Orthodontia-implantology-prosthodontics in rare diseases: the oligodontia example », *J. Dentofac. Anom. Orthod.*, vol. 17, n° 2, p. 204, 2014, doi: 10.1051/odfen/2013506.

[20] K. Bertl *et al.*, « Alveolar bone resorption after primary tooth loss has a negative impact on straightforward implant installation in patients with agenesis of the lower second premolar », *Clin. Oral Implants Res.*, vol. 29, n° 2, p. 155-163, févr. 2018, doi: 10.1111/clr.13033.

[21] « Réseau O-RARES ». Consulté le: 3 septembre 2023. [En ligne]. Disponible sur: <https://www.tete-cou.fr/offre-de-soins/reseau-o-rares>

- [22] DGOS, « L'offre de soins », Ministère de la Santé et de la Prévention. Consulté le: 31 août 2023. [En ligne]. Disponible sur: <https://sante.gouv.fr/soins-et-maladies/prises-en-charge-specialisees/maladies-rares/article/l-offre-de-soins>
- [23] A. Thuaire, R. Nicot, G. Raoul, et L. Lauwers, « Surgical bone augmentation procedures for oral rehabilitation of patients with oligodontia: a systematic review », *J. Stomatol. Oral Maxillofac. Surg.*, p. 101370, déc. 2022, doi: 10.1016/j.jormas.2022.101370.
- [24] J. Deatherage, « Bone Materials Available for Alveolar Grafting », *Oral Maxillofac. Surg. Clin. N. Am.*, vol. 22, n° 3, p. 347-352, août 2010, doi: 10.1016/j.coms.2010.06.003.
- [25] C. Pinter, A. Lasso, et G. Fichtinger, « Polymorph segmentation representation for medical image computing », *Comput. Methods Programs Biomed.*, vol. 171, p. 19-26, avr. 2019, doi: 10.1016/j.cmpb.2019.02.011.
- [26] O. Blume, M. Back, E. Dinya, D. Palkovics, et P. Windisch, « Efficacy and volume stability of a customized allogeneic bone block for the reconstruction of advanced alveolar ridge deficiencies at the anterior maxillary region: a retrospective radiographic evaluation », *Clin. Oral Investig.*, vol. 27, n° 7, p. 3927-3935, 2023, doi: 10.1007/s00784-023-05015-0.
- [27] A. H. Brook, « A unifying aetiological explanation for anomalies of human tooth number and size », *Arch. Oral Biol.*, vol. 29, n° 5, p. 373-378, 1984, doi: 10.1016/0003-9969(84)90163-8.
- [28] K. Bergström, « An orthopantomographic study of hypodontia, supernumeraries and other anomalies in school children between the ages of 8-9 years. An epidemiological study », *Swed. Dent. J.*, vol. 1, n° 4, p. 145-157, 1977.
- [29] V. Lind et I. Egermark-Eriksson, « [Inborn number of variations of permanent dentition. Comparative study of tooth eruption in children with hypodontia and normal dentition] », *Odontol. Revy*, vol. 20, n° 4, p. 413-418, 1969.
- [30] F. Clauss, E. Waltmann, P. Barriere, S. Hadj-Rabia, M.-C. Manière, et M. Schmittbuhl, « Dento-maxillo-facial phenotype and implants-based oral rehabilitation in Ectodermal Dysplasia with WNT10A gene mutation: Report of a case and literature review », *J. Cranio-Maxillofac. Surg.*, vol. 42, n° 6, p. e346-e351, sept. 2014, doi: 10.1016/j.jcms.2014.01.037.
- [31] I. U.-T. D. RESERVES, « Orphanet: Oligodontie ». Consulté le: 3 octobre 2023. [En ligne]. Disponible sur: https://www.orpha.net/consor/cgi-bin/OC_Exp.php?Expert=99798&lng=FR

- [32] I. Rocchietta, M. Simion, M. Hoffmann, D. Trisciuglio, M. Benigni, et C. Dahlin, « Vertical Bone Augmentation with an Autogenous Block or Particles in Combination with Guided Bone Regeneration: A Clinical and Histological Preliminary Study in Humans: GBR with Autogenous Block or Particulate Graft », *Clin. Implant Dent. Relat. Res.*, vol. 18, n° 1, p. 19-29, févr. 2016, doi: 10.1111/cid.12267.
- [33] R. E. Marx et M. J. Morales, « Morbidity from bone harvest in major jaw reconstruction: A randomized trial comparing the lateral anterior and posterior approaches to the Ilium », *J. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 46, n° 3, p. 196-203, mars 1988, doi: 10.1016/0278-2391(88)90083-3.
- [34] A. Thuaire, R. Nicot, G. Raoul, et L. Lauwers, « Surgical bone augmentation procedures for oral rehabilitation of patients with oligodontia: A review with a systematic approach », *J. Stomatol. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 124, n° 1, Supplement, p. 101370, févr. 2023, doi: 10.1016/j.jormas.2022.101370.
- [35] M. Chatelet, F. Afota, et C. Savoldelli, « Review of bone graft and implant survival rate: A comparison between autogenous bone block versus guided bone regeneration », *J. Stomatol. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 123, n° 2, p. 222-227, avr. 2022, doi: 10.1016/j.jormas.2021.04.009.
- [36] G. Umberto, C. Maiorana, V. Ghiglione, G. Marzo, F. Santoro, et G. Szabò, « Osseointegration and Guided Bone Regeneration in Ectodermal Dysplasia Patients », *J. Craniofac. Surg.*, vol. 18, n° 6, p. 1296-1304, nov. 2007, doi: 10.1097/01.scs.0000246497.62065.5a.
- [37] R. Kirmeier, C. Gluhak, P. Marada, W. A. Wegscheider, A. Eskici, et N. Jakse, « Oral Rehabilitation of Adult Twins With Severe Lack of Bone Due to Hypohidrotic Ectodermal Dysplasia—A 12-Month Follow-Up », *J. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 67, n° 1, p. 189-194, janv. 2009, doi: 10.1016/j.joms.2008.07.014.
- [38] G. M. Raghoebar, P. Onclin, G. C. Boven, A. Vissink, et H. J. A. Meijer, « Long-term effectiveness of maxillary sinus floor augmentation: A systematic review and meta-analysis », *J. Clin. Periodontol.*, vol. 46, n° S21, p. 307-318, juin 2019, doi: 10.1111/jcpe.13055.
- [39] C. Fourcade, P. Lesclous, et J. Guiol, « Assignment of autogenous bone grafts for reconstruction of the alveolar ridge before implant placement », *J. Oral Med. Oral Surg.*, vol. 25, n° 1, Art. n° 1, 2019, doi: 10.1051/mbcb/2018028.

- [40] L.-H. Locatelli, « Greffes osseuses autogènes à visée implantaire ».
- [41] M.-N. Baccar, B. Laure, F. Sury, G. Romieux, B. Bonin, et D. Goga, « La greffe d'apposition à visée pré-implantaire pour édentation maxillaire antérieure », *Rev. Stomatol. Chir. Maxillofac.*, vol. 106, n° 3, p. 149-151, juin 2005, doi: 10.1016/S0035-1768(05)85835-8.
- [42] O. Bahat et R. V. Fontanessi, « Implant placement in three-dimensional grafts in the anterior jaw », *Int. J. Periodontics Restorative Dent.*, vol. 21, n° 4, p. 357-365, août 2001.
- [43] G. Widmark, B. Andersson, et C. J. Ivanoff, « Mandibular bone graft in the anterior maxilla for single-tooth implants. Presentation of surgical method », *Int. J. Oral Maxillofac. Surg.*, vol. 26, n° 2, p. 106-109, avr. 1997, doi: 10.1016/s0901-5027(05)80827-6.
- [44] M. Feichtinger, R. Mossböck, et H. Kärcher, « Assessment of bone resorption after secondary alveolar bone grafting using three-dimensional computed tomography: a three-year study », *Cleft Palate-Craniofacial J. Off. Publ. Am. Cleft Palate-Craniofacial Assoc.*, vol. 44, n° 2, p. 142-148, mars 2007, doi: 10.1597/06-047.1.

**RECONSTRUCTION OSSEUSE CHEZ LES PATIENTS ATTEINTS
D'AGÉNÉSIES DENTAIRES MULTIPLES AU SEIN DE L'UNITÉ DE
CHIRURGIE ORALE ET RÉHABILITATION : ÉTUDE
RETROSPECTIVE**

RESUME EN FRANÇAIS :

L'agénésie dentaire est l'anomalie dentaire la plus fréquente caractérisée par l'absence de développement d'un ou plusieurs germes dentaires, entraînant un défaut du nombre de dents. Ces patient(e)s, impacté(e)s fonctionnellement et esthétiquement, représentent un véritable défi de réhabilitation au sein des Centres de Références en maladie rare tel que le CHU de Toulouse. L'objectif de ce travail est de faire le point sur les protocoles de reconstruction osseuse pré-implantaire et les gains de volumes osseux obtenus, chez les patient(e)s avec oligodontie suivi(e)s au sein de l'Unité de Chirurgie Orale et Réhabilitation (UCOR) du service de médecine bucco-dentaire du CHU de Toulouse.

TITRE EN ANGLAIS:

BONE RECONSTRUCTION IN PATIENTS WITH MULTIPLE DENTAL AGENESIS IN THE
ORAL SURGERY AND REHABILITATION UNIT: A RETROSPECTIVE STUDY

DISCIPLINE ADMINISTRATIVE : Chirurgie dentaire

MOTS-CLES :

Agénésies dentaires, reconstruction osseuse, gain osseux, unité de chirurgie orale et réhabilitation

INTITULE ET ADRESSE DE L'UFR :

Université Toulouse III-Paul Sabatier

Faculté de santé – département d'odontologie 3 chemin des Maraîchers 31062 Toulouse Cedex

DIRECTEUR DE THESE : Dr VINEL Alexia (MCU-PH)