

Cas clinique et revue de la littérature

Le rôle de l'odontologiste dans le cadre du syndrome SAPHO : cas cliniques et revue de la littérature des signes oro-faciaux

Julie Sturque^{1,*}, Frédéric Denis^{1,2}, Véronique Guillerminet¹, Ludwig Loison-Robert¹, Victorin Ahoissi¹

¹ Département d'odontologie, CHU de Dijon, 21079 Dijon, France

² EA 481 Neurosciences, IFR 133, université de Franche-Comté, 25030 Besançon, France

(Reçu le 5 juillet 2016, accepté le 26 juillet 2016)

Mots clés :
syndrome SAPHO /
manifestations
buccales /
odontologie /
immunosuppresseurs

Résumé – Introduction : Le syndrome SAPHO est une affection rare associant des signes ostéo-articulaires et cutanés. C'est une maladie douloureuse et invalidante atteignant plus fréquemment les femmes que les hommes. Les signes cliniques au niveau de la sphère oro-faciale sont rarement évoqués. **Observations :** Les signes cliniques oro-faciaux évocateurs de ce syndrome ont été rapportés chez un homme de 50 ans et la prise en charge odontologique d'une femme de 39 ans atteinte d'un syndrome SAPHO est décrite. **Discussion :** L'odontologiste peut être amené à diagnostiquer un syndrome SAPHO devant certains signes oro-faciaux évocateurs qui font l'objet d'une revue de la littérature. De plus, il apporte sa contribution dans la prise en charge des lésions oro-faciales liées directement au syndrome ou indirectement mais dont le traitement nécessite des précautions particulières ainsi que par la recherche de foyers infectieux avant l'instauration des traitements du syndrome SAPHO. **Conclusion :** L'odontologiste doit jouer un rôle actif dans la prise en charge du syndrome SAPHO tant sur le versant diagnostique que thérapeutique.

Key words:
SAPHO syndrome / oral
manifestations /
dentistry /
immunosuppressive
agent

Abstract – The role of the dentist in SAPHO syndrome: case reports and literature review of orofacial manifestations. Introduction: SAPHO syndrome is a rare disorder combining osteoarticular and cutaneous signs. It is a painful and disabling disease, which affects women more frequently than men. Orofacial manifestations are rarely reported. **Observation:** The first case presents orofacial manifestations suggestive of SAPHO syndrome involving a 50-year-old patient, and the second case shows a 39-year-old woman affected by SAPHO syndrome treated in a department of dentistry. **Discussion:** Certain orofacial manifestations can suggest a diagnosis of SAPHO syndrome, which are the subject of a literature review. The dentist contributes to the management of the orofacial manifestations directly linked to the syndrome or indirectly, for which the treatment requires particular precautions and searching for foci of infection before the commencement of the SAPHO syndrome treatments. **Conclusion:** The dentist must be allowed to play an active role in the management of SAPHO syndrome, in both the diagnostic and therapeutic aspects.

Introduction

L'acronyme SAPHO (Synovite, Acné, Pustulose palmo-plantaire, Hyperostose et Ostéite) désigne un syndrome regroupant des manifestations ostéo-articulaires et cutanées. Il

s'agit d'une maladie inflammatoire dont les composantes infectieuses et génétiques restent imprécises.

Les données épidémiologiques disponibles ne permettent pas d'en estimer la prévalence faute de recensement précis des cas avérés. C'est une maladie douloureuse et invalidante atteignant plus fréquemment les femmes que les hommes, et surtout

* Correspondence : julie.sturque@gmail.com

l'adulte jeune entre 30 et 50 ans [1]. L'atteinte peut survenir dès la petite enfance sous la forme d'une ostéite [2].

En 1994, Kahn et al. ont défini trois critères permettant de diagnostiquer [3] :

- une ostéomyélite multifocale aseptique, avec ou sans lésions cutanées ;
- une atteinte articulaire aiguë ou chronique associée à une pustulose palmo-plantaire, un psoriasis pustuleux palmo-plantaire, une acné sévère (acné conglobata ou fulminante, une hidrosadénite de Verneuil) ;
- une ostéite mono- ou polyostotique aseptique associée à une pustulose palmo-plantaire, un psoriasis pustuleux palmo-plantaire, une acné sévère.

La présence d'un seul de ces critères est suffisante pour établir le diagnostic. Néanmoins, l'apparition des signes dermatologiques facilite l'établissement du diagnostic.

Pour compléter le diagnostic, des examens complémentaires s'avèrent nécessaires. L'imagerie de type radiographique et tomodynamométrique permet d'analyser l'augmentation de la densité et de l'épaisseur osseuse. Les lésions osseuses peuvent être monofocales ou multifocales (sternum, clavicule, métaphyse des os longs, bassin, vertèbre, calcaneum, mandibule, etc.). Une biopsie osseuse permet de confirmer le diagnostic et écarte les causes infectieuses ou tumorales. Le bilan biologique sanguin permet surtout le diagnostic des pathologies associées au syndrome telles que les maladies inflammatoires chroniques de l'intestin (la maladie de Crohn, la rectocolite hémorragique, la maladie cœliaque).

Actuellement, il n'existe pas de prise en charge bien codifiée pour le syndrome SAPHO mais elle se doit d'être pluridisciplinaire. Elle repose essentiellement sur un traitement symptomatique à base d'anti-inflammatoires non stéroïdiens [4]. Cependant, un traitement spécifique à base d'immunomodulateurs (antiTNF- α) ou de biphosphonates peut aussi être instauré dans les formes les plus réfractaires [5, 6].

Dans le cadre de ce syndrome, l'odontologue comme le chirurgien oral peuvent donc être amenés à concourir au diagnostic de ce syndrome. En effet, de façon fortuite ou sur point d'appel, l'examen clinique ou l'orthopantomogramme peut mettre en évidence des manifestations oro-faciales osseuses ou cutanées que l'odontologue doit repérer et confronter aux atteintes que le patient peut présenter en dehors de la sphère buccale [7-10]. De plus, une fois le diagnostic établi, l'odontologue doit faire preuve de vigilance quant aux traitements systémiques instaurés dans le cadre de ce syndrome car ils sont bien souvent responsables d'une majoration du risque infectieux. Cet article rapporte deux situations cliniques de manifestations du syndrome SAPHO. Le premier cas met en avant le rôle de l'odontologue dans le diagnostic de ce syndrome face à un signe oro-facial évocateur. Le deuxième cas décrit la prise en charge d'une lésion apicale chez une patiente atteinte et traitée pour un syndrome SAPHO. Ce travail est l'occasion d'un recensement des



Fig. 1. Vue clinique de la tuméfaction mandibulaire gauche.
Fig. 1. Clinical view of the left mandibular swelling.

signes cliniques oro-faciaux décrits dans la littérature pouvant contribuer au diagnostic de ce syndrome.

Observation 1

Un homme de 50 ans était adressé par son médecin généraliste pour une tuméfaction latéro-mandibulaire gauche non douloureuse évoluant depuis 6 mois. Après un interrogatoire rigoureux des antécédents, le patient présentait des douleurs vertébrales par poussée inflammatoire depuis une vingtaine d'années suivies en rhumatologie et un psoriasis palmo-plantaire suivi en dermatologie. Il est traité par prednisone (40 mg/jour) et méthotrexate (15 mg/semaine).

À l'examen clinique, on notait une parodontite chronique et la présence de seulement 2 dents mandibulaires 44 et 47. On observait une tuméfaction mandibulaire antérieure gauche exo- et endo-buccale, indurée non douloureuse non inflammatoire. La muqueuse en regard était bourgeonnante sans ulcération, fistule ou exposition osseuse (Fig. 1). L'orthopantomogramme montrait une image lacunaire radioclaire à limites floues avec des plages radio-opaques d'ostéocondensation (Fig. 2). L'examen tomodynamométrique retrouvait cette même image ainsi que des corticales vestibulaires et linguales soufflées. Les examens d'imagerie étaient évocateurs d'une ostéite hypertrophique. La biopsie confirmait l'absence de cellules tumorales malignes.

Le bilan précis de cette atteinte buccale confronté aux éléments diagnostiques en possession du rhumatologue et du dermatologue permettait de poser le diagnostic d'un syndrome SAPHO au décours d'une concertation pluridisciplinaire.

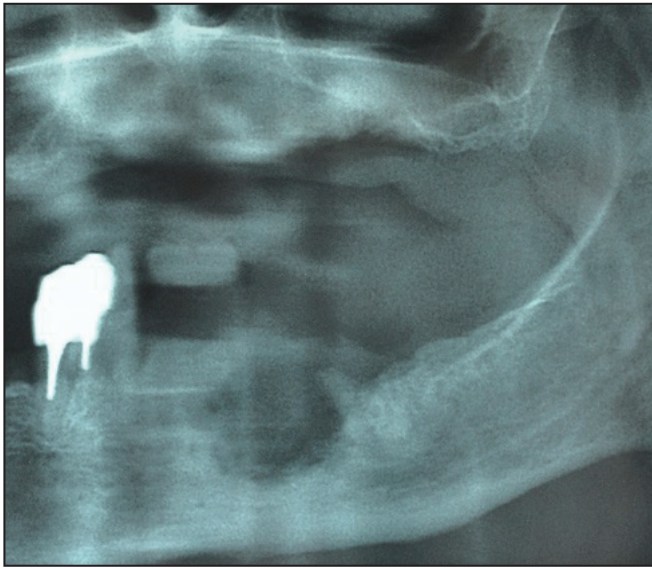


Fig. 2. Aspect lacunaire avec plage d'ostéocondensation à l'orthopantomogramme.
Fig. 2. Orthopantomogram: Aspect of the gap with range of osteocondensation.

Malgré le préjudice esthétique, la lésion étant indolore, une abstention thérapeutique était décidée sous réserve d'un suivi régulier (1 visite tous les 4 mois).

Observation 2

Une patiente, âgée de 39 ans, adressée par le service de rhumatologie se présentait à la consultation d'odontologie avant la mise en œuvre d'un traitement immunosuppresseur.

Elle avait pour antécédents un psoriasis, un syndrome de Raynaud et un syndrome sec. Elle était suivie depuis 2007 pour un syndrome SAPHO découvert devant des douleurs de la première articulation sterno-costale secondairement associées à des douleurs du plastron sternal et des rachialgies cervico-dorsales. Sur le plan cutané, elle présentait une éruption chronique de pustules intradermiques, jaunâtres, ainsi qu'un érythème plus ou moins squameux, bilatéral et symétrique intéressant la paume des mains (Fig. 3) et la plante des pieds (Fig. 4). Elle était d'abord traitée par des perfusions de kétoprofène et de pamidronate de sodium (biphosphonates) puis devant l'échec de ces traitements, l'instauration d'un traitement par antiTNF- α était préconisée par les rhumatologues.

L'avis d'un odontologiste était donc requis pour la recherche et le traitement des foyers infectieux bucco-dentaires. À l'interrogatoire, elle décrivait une douleur lancinante en regard de l'hémiface droite.

Le bilan radiologique (orthopantomogramme, scanner) montrait une prémolaire 25 dépulpée associée à une image



Fig. 3. Pustules palmaires sur un fond érythémateux.
Fig. 3. Pustules on an erythemic bottom on the palm.



Fig. 4. Pustules plantaires sur un fond érythémateux.
Fig. 4. Pustules on an erythemic bottom on the feet

apicale (Fig. 5). Devant le risque infectieux induit par les immunosuppresseurs, un geste chirurgical était préféré à une reprise de traitement endodontique.

Par ailleurs, la prise au long cours de biphosphonates par voie intraveineuse imposait la mise en œuvre de précautions per-opératoires concernant la fermeture du site opératoire ainsi que l'adaptation des prescriptions péri-opératoires.

Ainsi, le traitement consistait en une résection apicale sous anesthésie générale sans infiltration locale. Après énucléation du kyste, le site était lavé abondamment à la povidone iodée et fermé de façon étanche après adjonction de colle biologique (Tissucol®). Une antibiothérapie préventive était démarrée 24 h avant l'intervention et poursuivie pendant 10 jours (amoxicilline 2 g/jour). En post-opératoire, des bains de bouche antiseptiques (chlorhexidine 0,2 % pendant 8 jours) complétaient le traitement.

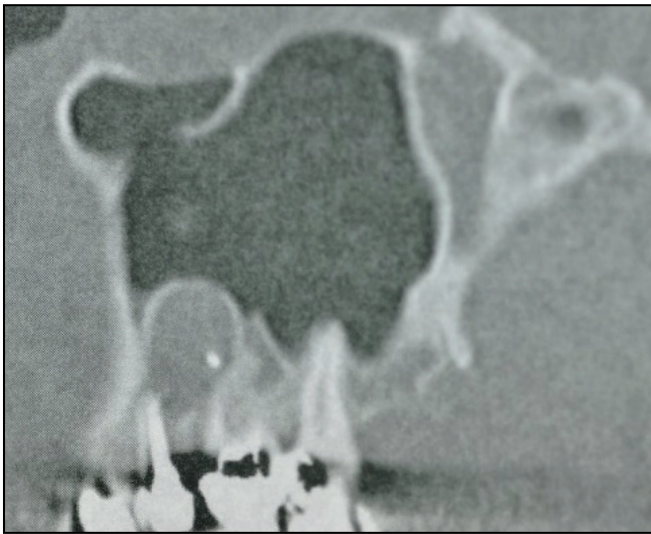


Fig. 5. Foyer apical sur 25 au CBCT.
Fig. 5. CBCT: Apico-dental cyst on 25.

Les suites immédiates ont été simples. L'anatomopathologie révélait un kyste remanié sans caractère de malignité. À deux mois, la cicatrisation muqueuse était parfaite autorisant le début du traitement par antiTNF- α . À six mois, aucune complication n'était observée.

Discussion

L'étiologie de ce syndrome est complexe et reste à ce jour inconnue. Il résulte probablement de facteurs infectieux, génétiques et immunologiques [11].

Kahn et al. ont clairement défini les composantes ostéo-articulaires et cutanées du syndrome [3] mais leurs localisations sont variables.

Le rôle de l'odontologue dans le diagnostic du syndrome SAPHO

Depuis une quinzaine d'années, la littérature recense des cas de patients présentant des lésions évocatrices et parfois isolées de la sphère oro-faciale participant à l'établissement d'un syndrome SAPHO (Tab. I) [12]. Ces lésions peuvent être groupées par type d'organe atteint. Ainsi on distingue les manifestations osseuses, articulaires et cutané-muqueuses.

Concernant les lésions cutané-muqueuses, des atteintes de la muqueuse buccale ont été décrites comme la présence d'ulcérations aphtoïdes récidivantes rattachée à une maladie de Behçet chez une patiente présentant des manifestations ostéoarticulaires et cutanées d'un syndrome de SAPHO ou encore l'éruption de pustules gingivales stériles diffuses associée à une ostéomyélite de la mandibule chez un homme de 74 ans [13, 14]. Une stomatite neutrophilique pourrait donc

intégrer ce syndrome, il s'agirait au niveau de la muqueuse orale de l'équivalent d'une dermatite neutrophilique telle que la pustulose palmo-plantaire [10]. La dermatite et la stomatite neutrophiliques se caractérisent par une infiltration de neutrophiles dans le derme ou l'épithélium et l'absence de micro-organismes.

Cependant concernant la sphère oro-faciale, l'atteinte est principalement d'ordre ostéo-articulaire, siégeant à la mandibule sous la forme d'ostéomyélite ou d'hyperostose [11, 15]. L'ostéomyélite diffuse sclérosante aseptique chronique de la mandibule est la lésion la plus rapportée dans la littérature. Il s'agit d'une inflammation de l'os cortical et de l'os spongieux d'étiologie inconnue évoluant de façon chronique rythmée par des poussées [16]. Le caractère non suppuratif sans fistule ni écoulement purulent est un argument important en faveur du diagnostic [12]. L'atteinte est plutôt unilatérale [12]. Le patient se plaint d'un œdème jugal d'allure inflammatoire pouvant déformer le visage, de douleurs plus ou moins intenses, de paresthésies labiales inférieures et d'une limitation de l'ouverture buccale [3]. Le parodonte et les éléments dentaires en regard du site lésé sont sains, ce qui constitue un élément important en faveur du diagnostic et contre-indique les extractions dentaires [16].

Les examens complémentaires reposent sur l'imagerie et l'anatomopathologie.

Le scanner révèle une ostéolyse corticale ponctuée de foyers d'ostéocondensation médullaire avec un respect du canal mandibulaire. La scintigraphie osseuse montre un foyer d'hyperfixation et fait le bilan des autres localisations d'ostéomyélite [16].

La biopsie écarte une origine microbienne ou tumorale et élimine les diagnostics différentiels : ostéite infectieuse, sarcome d'Ewing, lymphome, maladie de Paget [11, 16].

L'atteinte de la mandibule semble plus fréquemment associée à une pustulose palmo-plantaire qu'à de l'acné sévère mais elle peut aussi se présenter de façon isolée rendant son diagnostic plus difficile [4]. Cependant, selon Zemann et al., les signes osseux mandibulaires sont rares ; ils se retrouvent seulement chez 10 % des patients présentant un syndrome SAPHO [17].

D'autres manifestations oro-faciales peuvent toucher l'articulation temporo-mandibulaire (ATM) sous la forme d'une arthrite, autrement appelée synovite, qui se manifeste par des douleurs de rythme inflammatoire, une tuméfaction rouge et chaude de l'articulation. Ceci peut évoluer vers une ankylose occasionnant alors une limitation de l'ouverture buccale de sévérité variable [7-9].

De façon plus anecdotique, des cas d'ostéomyélite temporale ont été exposés. L'un responsable d'une hypoacousie était associé à une ostéomyélite mandibulaire et à une arthrite de l'ATM [18]. Un autre cas rapportait des complications locorégionales à type de méningite et de myosite découlant de l'atteinte temporale [19].

Tableau I. Cas de syndrome SAPHO avec manifestations orales rapportés dans la littérature.

Table I. SAPHO syndrome with oral manifestations case reports in the literature.

Auteurs	Date	Âge/Sexe	Manifestations oro-faciales	Manifestations du syndrome SAPHO	Traitements
Mari et al. [1]	2014		Ostéomyélite diffuse sclérosante mandibulaire		Anti-TNF (Etanercept)
Wannfors et al. [15]	2013		Ostéomyélite chronique mandibulaire		
Deng et al. [23]	2012	42 ans / Femme	Ostéomyélite multifocale chronique	Ulcération cornéenne unilatérale	Roxithromycine 300mg *2/j-92 jours
Hatano et al. [21]	2012	61 ans / Homme	Ostéomyélite diffuse de hémimandibule gauche	Pustulose palmoplantaire bilatérale	Prednisolone, Biphosphonates
Roldán et al. [24]	2001	26 ans	Ostéomyélite diffuse mandibulaire	Acné conglobata Ostéomyélite sternale, de la tête fémorale, du bassin Arthrite aseptique du genou, de la cheville, de l'articulation sterno-claviculaire	Chirurgie, Antibiothérapie, oxygénothérapie hyperbare, Corticoïdes, AINS, Minocycline, Isotrétinoïne
Seno et al. [19]	2000	46 ans	Ostéomyélite temporale compliquée d'une méningite et d'une myosite	Pustulose palmoplantaire Arthrite aseptique de l'articulation sterno-claviculaire	Ciclosporine A
Chou et al. [10]	2016	74 ans / Homme	Pustulose gingivale Ostéomyélite mandibulaire		
Yabe et al. [13]	2008	65 ans / Femme	Ulcérations aphtoïdes récidivantes (maladie de Behçet associée)	Arthrite aseptique du genou Pustulose palmoplantaire Douleur thoracique antérieure	
Zemann et al. [17]	2011	44 ans / Femme	Hyperostoses mandibulaires	Pustulose palmoplantaire	Clindamycine AINS, Oxygénothérapie hyperbare, Résection osseuse et reconstruction par prélèvement osseux de la crête iliaque
McPhillips et al. [7]	2010	46 ans / Homme	Arthrite de l'ATM Ankylose de l'ATM	Pustulose palmo-plantaire Hyperostoses costales et sternales	Corticoïdes, Alentuzumab, Corticoïdes IM, Botox IM Condylectomie totale, Prothèse articulaire totale de l'ATM
Müller-Richter et al. [8]	2009	42 ans	Ankylose de l'ATM		Condylectomie, Condyloplastie

Pour faciliter le diagnostic et le suivi des patients touchés par un syndrome SAPHO, une piste de recherche repose sur le dosage de la protéine salivaire S100A12. En effet, le taux salivaire de cette protéine semble plus élevé chez les patients présentant un syndrome SAPHO et ses concentrations varient en fonction de l'activité de la maladie. Cette protéine pro-inflammatoire pourrait donc être utilisée comme un biomarqueur de la pathologie afin d'en assurer le suivi [20].

Le rôle de l'odontologiste dans la prise en charge des patients présentant un syndrome SAPHO

L'odontologiste peut aussi être confronté à la prise en charge de lésions dentaires et de la sphère orale qu'elles soient ou non en lien direct avec le syndrome SAPHO. Il sera sollicité pour :

- le bilan préthérapeutique lié au syndrome SAPHO principalement lors de l'instauration d'immunosuppresseurs et de biphosphonates ;
- le suivi et le traitement éventuel des lésions oro-faciales liées au syndrome ;
- la prise en charge de lésions sans lien direct avec le syndrome mais dont le traitement nécessite des précautions particulières.

La prise en charge de cette maladie chronique est pluridisciplinaire et repose principalement sur un traitement symptomatique [1]. Ainsi, les AINS représentent le traitement de base [4]. Les corticoïdes peuvent aussi être intéressants d'un point de vue symptomatique [10, 21]. Les injections de toxines botuliques dans les muscles masséters peuvent être indiquées pour diminuer les contraintes sur l'articulation temporo-mandibulaire et soulager les douleurs [7]. Les antibiotiques peuvent être prescrits comme la clindamycine pour les formes cutanées et les macrolides dont l'azythromycine pour ses propriétés anti-inflammatoires voire immunomodulatrices actives sur les atteintes osseuses et cutanées [17, 22, 23]. L'action des cyclines sur les manifestations cutanées et osseuses a aussi été notée [24]. Pour leur capacité immunomodulatrice, l'efficacité des anti-TNF-alpha, de la ciclosporine A et du méthotrexate peut être remarquable dans les formes rebelles [1, 4]. Les rétinoïdes sont indiqués dans les formes graves d'acné [24]. Par ailleurs, pour traiter les lésions osseuses, l'oxygénothérapie hyperbare peut être prescrite pour lutter contre l'hypoxie des os infectés et les biphosphonates administrés pour les formes ostéolytiques [6, 17, 24].

Devant un grand nombre de ces traitements, des précautions thérapeutiques s'avèrent nécessaires. Ainsi, les anti-TNF alpha, le méthotrexate et les biphosphonates nécessitent une recherche et une éradication des foyers infectieux bucco-dentaires avant leur instauration. Le choix de la thérapeutique bucco-dentaire doit considérer le risque infectieux en fonction de la virulence de la lésion dentaire, du degré d'immunosuppression induit par le traitement immunomodulateur et de

la morbidité inhérente ; comme notamment le niveau de bactériémie résultant de la thérapeutique choisie.

Dans le cas de la mise en place de biphosphonates, s'ajoute la prévention du risque d'ostéochimionécrose des maxillaires. L'odontologiste ou le chirurgien oral doit expliquer au patient cette augmentation du risque infectieux induit par les immunomodulateurs et les biphosphonates, impliquant une hygiène dentaire rigoureuse et un suivi bucco-dentaire régulier et rapproché.

Dans les cas sévères de SAPHO, un traitement chirurgical peut être discuté. Ainsi, une résection de la tête du condyle et son remplacement par des artifices de reconstruction autologue ou hétérologue sont décrits par certains auteurs [8].

Conclusion

Le syndrome SAPHO est une association de manifestations osseuses, articulaires et cutanées. Syndrome d'expression variée, le diagnostic repose sur l'expertise de nombreux spécialistes. L'odontologiste doit jouer un rôle actif tant dans la prise en charge diagnostique que thérapeutique des troubles douloureux et fonctionnels de la cavité orale. La contribution du spécialiste de la cavité orale au diagnostic implique un interrogatoire rigoureux avec un inventaire exhaustif des antécédents et des traitements suivi d'un examen endo- et exobuccal méticuleux.

Concernant le volet thérapeutique, il évalue le risque infectieux et adapte la prise en charge des lésions de la sphère orale.

Remerciements

Nous souhaitons remercier le staff du CHU de Dijon.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Mari A, Morla A, Melero M, Schiavone R, Rodríguez J. Diffuse sclerosing osteomyelitis (DSO) of the mandible in SAPHO syndrome: A novel approach with anti-TNF therapy. Systematic review. *J Cranio-Maxillofac Surg* 2014;42(8):1990-1996.
2. Golla A, Jansson A, Ramser J, Hellebrand H, Zahn R, Meitingner T, et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO): evidence for a susceptibility gene located on chromosome 18q21.3-18q22. *Eur J Hum Genet* 2002;10(3):217-221.
3. Kahn MF, Hayem F, Hayem G, Grossin M. Is diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible part of the synovitis, acne,

- pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome? Analysis of seven cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;78(5):594-598.
4. Hayem G, Bouchaud-Chabot A, Benali K, Roux S, Palazzo E, Silbermann-Hoffman O, et al. SAPHO syndrome: a long-term follow-up study of 120 cases. *Semin Arthritis Rheum* 1999;29(3):159-171.
 5. Handrick W, Hörmann D, Voppmann A, Schille R, Reichardt P, Tröbs RB, et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis--report of eight patients. *Pediatr Surg Int* 1998;14(3):195-198.
 6. Guignard S, Job-Deslandre C, Sayag-Boukris V, Kahan A. Pamidronate treatment in SAPHO syndrome. *Joint Bone Spine* 2002;69(4):392-396.
 7. McPhillips A, Wolford LM, Rodrigues DB. SAPHO syndrome with TMJ involvement: review of the literature and case presentation. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2010;39(12):1160-1167.
 8. Müller-Richter UD, Roldán JC, Mörtl M, Behr M, Reichert TE, Driemel O. SAPHO syndrome with ankylosis of the temporomandibular joint. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2009;38(12):1335-1341.
 9. Utumi ER, Oliveira Sales MA, Shinohara EH, Takahashi A, Coracin FL, Rocha RG, et al. SAPHO syndrome with temporomandibular joint ankylosis: clinical, radiological, histopathological, and therapeutical correlations. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008;105(3):e67-72.
 10. Chou A, Schulman JM, Gross AJ, Jordan RC, Ramos DM. Gingival pustules and sterile diffuse sclerosing osteomyelitis as a feature of synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, osteitis (SAPHO) syndrome. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2016;121(5):e116-122.
 11. Suei Y, Taguchi A, Tanimoto K. Diagnosis and classification of mandibular osteomyelitis. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005;100(2):207-214.
 12. Pottecher P, Loffroy R, Estivalet L, Thouant P, Ornetti P, Ricolfi F, et al. SAPHO syndrome revealed by sclerosing mandibular osteomyelitis. *Diagn Interv Imaging* 2014;95(9):885-887.
 13. Yabe H, Takano Y, Nomura E, Nakayama M, Kihara M, Miyakawa S, et al. Two cases of SAPHO syndrome accompanied by classic features of Behçet's disease and review of the literature. *Clin Rheumatol* 2008;27(1):133-135.
 14. Caravatti M, Wiesli P, Uebelhart D, Germann D, Welzl-Hinterkörner E, Schulthess G. Coincidence of Behçet's disease and SAPHO syndrome. *Clin Rheumatol* 2002;21(4):324-327.
 15. Wannfors K. SAPHO (synovitis-acne-pustulosis-hyperostosis-osteitis): a multidisciplinary approach. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;116(6):692-697.
 16. Fleuridas G, Teysseres N, Ragot JP, Chikhani L, Favre-Dauvergne E. [Diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible and SAPHO syndrome]. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2002;103(2):96-104.
 17. Zemann W, Pau M, Feichtinger M, Ferra-Matschy B, Kaercher H. SAPHO syndrome with affection of the mandible: diagnosis, treatment, and review of literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2011;111(2):190-195.
 18. Marsot-Dupuch K, Doyen JE, Grauer WO, de Givry SC. SAPHO syndrome of the temporomandibular joint associated with sudden deafness. *AJNR Am J Neuroradiol* 1999;20(5):902-905.
 19. Seno A, Arata J, Matsuura Y, Suemitsu I. Palmoplantar pustulosis with pustulotic arthroosteitis involving temporal osteomyelitis and meningitis. *J Dermatol* 2000;27(4):269-272.
 20. Sanna M, Firinu D, Manconi PE, Pisanu M, Murgia G, Piras V, et al. The salivary proteome profile in patients affected by SAPHO syndrome characterized by a top-down RP-HPLC-ESI-MS platform. *Mol Biosyst* 2015;11(6):1552-1562.
 21. Hatano H, Shigeishi H, Higashikawa K, Shimasue H, Nishi H, Oiwa H, et al. A case of SAPHO syndrome with diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible treated successfully with prednisolone and bisphosphonate. *J Oral Maxillofac Surg* 2012;70(3):626-631.
 22. Schilling F, Wagner AD. [Azithromycin: an anti-inflammatory effect in chronic recurrent multifocal osteomyelitis? A preliminary report]. *Z Für Rheumatol* 2000;59(5):352-353.
 23. Deng R, Yang X, Hao J. Effective medical treatment in patients with SAPHO syndrome involving the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012;114(3):401-403; author reply 403.
 24. Roldán JC, Terheyden H, Dunsche A, Kampen WU, Schroeder JO. Acne with chronic recurrent multifocal osteomyelitis involving the mandible as part of the SAPHO syndrome: case report. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2001;39(2):141-144.