

LE TORTICOLIS SPASMODIQUE DE L'ADULTE

Etude d'un cas guéri par le trihexyphénidyl

ANDRIANTSEHENO L.M., ANDRIANASY T.F

RESUME

Les auteurs rapportent un cas de torticolis cryptogénétique acquis de l'adulte, guéri par une dose modérée de trihexyphénidyl. Les anti-cholinergiques centraux offrent une alternative valable pour certains pays qui ne disposent pas de toxine botulinique.

Mots clés : Torticolis spasmodique, anti-cholinergique, Madagascar.

SUMMARY

*Adult spasmodic torticollis.
Study of one case cured with Trihexyphenidyl.*

The authors report on case of acquired cryptogenic torticollis cured with a moderate dose of Trihexyphenidyl. Central anticholinergics offer an acceptable alternative for certain countries where botulinum toxin is not available.

Key-words : Spasmodic torticollis-acquired, anti-cholinergic, Madagascar.

Les dystonies idiopathiques ou cryptogénétiques demeurent des affections mystérieuses dont le traitement est souvent aléatoire.

Les formes focales auxquelles appartient le torticolis spasmodique en constituent la variété la plus fréquente qui réagit favorablement à l'injection intramusculaire, au point moteur, de toxine botulinique. Lorsque celle-ci n'est pas disponible, les anti-cholinergiques centraux offrent une alternative valable, particulièrement dans certaines régions où la dose efficace des médicaments paraît significativement faible par rapport à celle utilisée dans les pays occidentaux.

Afin d'illustrer ces constatations, l'observation d'un patient adulte ayant un torticolis cryptogénétique amélioré par

l'administration de 15 mg par jour de trihexyphénidyl (ARTANE®) est rapportée.

1 - OBSERVATION

M. R..., homme âgé de 52 ans, est venu consulter au mois de mars 1992 pour un torticolis spasmodique.

Ce patient sans antécédent personnel ou tare familiale connue ne prenait aucun médicament ou drogue de façon continue.

Le début de la contracture a été insidieux et remontait au début de l'année 1991. Avec le temps, la contracture était devenue douloureuse et presque permanente, bien que réversible par simple attouchement du menton. Les territoires contigus (face, tronc, membre supérieur) étaient épargnés.

La pression artérielle était de 130 >80 mm de Hg et l'examen oculaire à la lampe à fente n'a pas montré d'anneau de Kayser-Fleischer. Les examens biologiques habituels, comprenant une sérologie pour la cysticercose, une radiographie du crâne et un électroencéphalogramme (EEG) étaient normaux. L'électromyogramme (EMG) n'a pas été réalisé. Il existait une arthrose cervicale à gauche sur les radiographies du rachis cervical.

Le diagnostic de dystonie focale cryptogénétique a été posé et le malade, qui avait déjà essayé, sans succès, différents traitements (guérisseurs, rebouteux, massage, acupuncture, tetrazepam, levodopa) a été traité par du trihexyphénidyl à la dose de 15 mg par jour à dose progressive.

Les effets secondaires du médicament ont été jugés tolérables, ils consistaient en sécheresse des muqueuses, en troubles visuels, en une légère diminution du rendement intellectuel. L'amélioration est apparue au bout de quelques semaines et devant la disparition presque complète des signes, le traitement a été arrêté un an plus tard ; l'amélioration s'est maintenue avec actuellement trois ans de recul.

Hôpital Universitaire de Mahajunga-Madagascar.

II - COMMENTAIRES

II - 1 - Cliniques

Le torticolis spasmodique est une des dystonies focales (1, 9). Ces affections sont plus fréquentes que les dystonies généralisées, ou les myodystrophies. Selon les auteurs la prévalence est comprise entre 34 et 245 cas par million d'habitants. Ces torticolis peuvent survenir à tout âge, mais s'observent préférentiellement entre 30 et 70 ans. Leurs causes peuvent être extra-neurologiques et dues à un déséquilibre oculomoteur congénital ou acquis, à des anomalies ostéo-musculaires cervicales, à une prise d'anti-dopaminergiques D2. Les étiologies neurologiques sont plus rares que celles rencontrées dans les autres formes de dystonie : 12 % contre 46 % pour la forme multifocale, 42 % pour la forme généralisée. Chez l'enfant et l'adolescent, il faut rechercher une affection héréditaire ou dégénérative (5, 13, 17). Les dystonies focales sont héréditaires dans 25 % des cas (19). FAHN (3) a décrit aux Philippines une forme récessive liée au sexe.

Les formes symptomatiques sont aussi plus rares chez l'adulte (13 %) que chez l'enfant (41 %) (5,13).

En tenant compte de ces données, de la négativité de l'anamnèse et d'un examen clinique bien conduit, on peut, dans les pays en développement, aboutir au diagnostic de dystonie focale cryptogénétique ou idiopathique à l'aide de quelques investigations de routine.

II - 2 - Thérapeutique

Le traitement actuel de cette affection repose sur l'injection intramusculaire de toxine botulinique (10). Malheureusement, son prix prohibitif, l'inconstance et la relative brièveté de son effet (8), qui implique des injections répétées, sources d'immunisation (6), ont fait essayer un certain nombre de médicaments administrés par voie systémique : le baclofen (12), le clonazepam (12), la diphenhydra-

mine (18), le lisuride (16). Toutefois ce sont les anti-cholinergiques centraux, dont le trihexyphénydyl, qui ont donné les résultats les plus constants dans 50 % des cas, mais à une dose élevée (50 mg par jour chez l'adulte, 80 mg chez l'enfant), qui est souvent mal tolérée (2).

La pratique quotidienne montre que le patient malgache réagit correctement aux médicaments avec des doses significativement plus faibles que celles utilisées chez l'europpéen. Le cas rapporté ici illustre cette constatation.

Il faut toutefois savoir que 7 à 50 %, des dystonies focales ont une rémission spontanée (4, 7,11), mais qu'il n'existe pas de profil reconnu de la population concernée (7) ; enfin les anti-cholinergiques peuvent paradoxalement induire des mouvements choréïques (14).

III - 3 - Physiopathologie

Il est admis que la dystonie résulte d'une «libération» des noyaux thalamo-corticaux du frein exercé par le striatum. Cette libération, comme dans la maladie de Parkinson, peut être secondaire à une déficience en dopamine qui agit sur les neurones putaminaux, organisés somatotopiquement, à l'image du cortex sensitivomoteur, c'est-à-dire avec une sur-représentation des régions brachio-faciales.

Une petite lésion focale du faisceau nigrostrié, non détectable par la technique radiographique actuelle se traduirait alors par une dystonie focale. Les récepteurs dopaminergiques striataux dénervés, deviennent hypersensibles et l'administration d'un agoniste exacerbe les troubles. En se basant sur cette hypothèse, les anti-cholinergiques auraient pour rôle de maintenir l'équilibre striatal en acétylcholine/dopamine, en attendant la repousse distale des axones nigrostriés. Ce mécanisme permettrait d'expliquer l'effet positif du trihexyphénydyl, la stabilité du résultat et, au contraire, le caractère aggravant de la levodopa chez notre malade.

BIBLIOGRAPHIE

1 - FAHN S., MARSDEN C. M., CALNE D.B.
Classification and investigation of dystonia.
In MARSDEN CD, FAHN S eds. Movement disorders, 2, London,
Butterworth, 1987, 332-353.
2 - FAHN S.
High dosage anticholinergic therapy in dystonia.
Neurology 1983, 33, 1255-1261.

3 - FAHN S., MOSKOWITZ C.
X-linked recessive dystonia and Parkinson in Filipino males.
Ann Neurol 1988, 24, 179.
4 - FRIEDMANN A., FAHN S.
Spontaneous remissions in spasmodic torticollis.
Neurology 1986, 398-400.
5 - FROSS R.D., MARTIN WR.W., LI D. et al.

- Lesions of the putamen : their prevalence in dystonia.
Neurology 1987, 37, 1125-1129.
- 6 - HAMBLETON P., COHEN HE., PALMER B.J., MELLING J.
Antitoxins and botulinum toxin treatment.
Br. Med. J. 1992, 304, 959-960.
- 7 - JAHANSHAHI M., PHIL M., MARION M. H., MARSDEN D.
Natural history of adult-onset idiopathic torticollis.
Arch Neurol 1990, 47, 548-552.
- 8 - KOLLER W., VETERE-OVERFIELD B., GRAY C. et al.
Failure of fixed dose, fixed muscle injection of botulinum toxin in torticollis.
Clin. Neuropharm. 1990, 13, 355-358.
- 9 - LAKKE J.P.W. F.
Classification of extrapyramidal disorders.
J. Neurol. Sc. 1981, 51, 311-327.
- 10 - LORENTZ T., SUBRAMANIAN S., YIANNIKAS C.
Treatment of idiopathic spasmodic torticollis with botulinum toxin A : a double-blind study on 23 patient
Mov. Disorders 1991, 6-145-150.
- 11 - LOWEINSTEIN D. H., AMINOFF M. J.
The clinical course of spasmodic torticollis.
Neurology 1988, 38, 530-532.
- 12 - MARSDEN C. D.
The treatment of severe dystonia in children and adults.
J. Neurol. Neurosurg. Psych. 1984, 43, 1166-1173.
- 13 - MARSDEN C. D.
Investigation of dystonia.
Adv. Neurol., 1988, 50, 35-44.
- 14 - NOMOTO M., THOMPSON P. D., SHEENY M. PP. et al.
Anticholinergic-induced chorea in the treatment of focal dystonia.,
Mov. Disorders 1987, 2, 53-56.
- 15 - NUTT J. G., MUENTER M. D., ARONSON A. et al.
Epidemiology of focal and generalised dystonia in Rochester, Minnesota.
Mov. Disorders 1988, 3, 188-194.
- 16 - QUINN N. P., LANG A. E., SHENNY N. P. et al.
Lisuride in dystonia.
Neurology 1985, 35, 766-769.
- 17 - ROOS R. C., BRUYN G. W.
Symptomatic dystonia.
In Handbook of clinical neurology, vol 5 (49) : Extrapyramidal disorders,
PJ VINKEN, GW BRUYN, HL KLAWANS ed, Elsevier Sc publ 1985,
32, 541-547.
- 18 - TRUONG D., SANDRONI P., VAN DER NOORD S. et al.
Diphenhydramine is effective in the treatment of idiopathic dystonia.
Arch. Neurol. 1995, 52, 405-407.
- 19 - WADDY H. M., FLETCHER N. A., HARDING A. E et al.
A genetic study of idiopathic focal dystonia.
Ann Neurol 1991, 29, 320-324.