

Ainhum: Clinical, radiographic and therapeutic aspects, about 3 cases

Amina Nomtondo Ouédraogo¹, Patrick Wendpouiré Hamed Dakouré², Maodo Ndiaye³, Seraphine Zeba/Lompo⁴, Fagnima Traoré⁵, Sayouba Tinto⁶, Sidnoma Muriel Ouédraogo⁷, Patrice Gilbert Tapsoba⁷, Pascal Niamba⁷, Fatou Barro-Traoré⁷, Adama Traoré⁷

¹Department of Dermatology, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Raoul Follereau Dermatology Center, Ouagadougou, Burkina Faso, ²Department of Surgery, High Institut of Health Sciences, Orthopaedics and Traumatology Service, University Hospital Souro Sanou, Bobo Dioulasso, Burkina Faso, ³Departement of Dermatology, Cheick Anta Diop University Dakar, Dermatology clinic, Aristide Le Dantec University Hospital, Dakar, Senegal, ⁴Raoul Follereau Dermatology Center, Ouagadougou, Burkina Faso, ⁵Dermatology Service of Regional Hospital of Ouahigouya, Burkina Faso, ⁶Department of Surgery, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Orthopaedics and Traumatology Service, University Hospital Yalgado Ouédraogo, Ouagadougou, Burkina Faso, ⁷Department of Dermatology, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Dermatology Service University Hospital Yalgado Ouédraogo, Ouagadougou, Burkina Faso

Corresponding author: Dr. Amina Nomtondo Ouédraogo, E-mail: nomtondo2000@yahoo.fr

ABSTRACT

The ainhum or spontaneous dactyolysis is a rare pathologic condition in which a hyperkeratosis necking groove is formed around the proximal portion of the fifth toe leading to its auto-amputation. They were three all male patients, aged 32-52 years, without concept of smoking, or similar family pathology, no notion of barefoot walking long distances or previous trauma. They consulted for pain of the fifth toe or for a desire of amputation of the fifth toe. Disease duration ranged from 18 months to 6 years. On examination, the patient was in good condition without fever. We noted a keratotic consistency constriction ring loose or tight enclosing the base of the right fifth toe. The other ends were free from any constriction. Radiography of the foot noted constriction adjacent soft parts in all patients and bone involvement in 2 patients. The diagnosis of ainhum was made. A surgical treatment with Z-plasty or amputation was performed. The outcome was favorable with no uncommitted functional prognosis. The ainhum spontaneous is a rare disease, the diagnosis is clinical. The prognosis after surgical treatment is favorable. These observations by their diversity show different aspects of ainhum.

Key words: Dactyolysis spontaneous; Self-amputation; Z-plasty; Dry gangrene

How to cite this article: Ouédraogo AN, Dakouré PWH, Ndiaye M, Zeba/Lompo S, Traoré F, Tinto S, Ouédraogo SM, Tapsoba PG, Niamba P, Barro-Traoré F, Traoré A. Ainhum: Clinical, radiographic and therapeutic aspects, about 3 cases. Our Dermatol Online. 2016;7(4):453-458.

Submission: 17.08.2016; **Acceptance:** 18.09.2016

DOI:10.7241/ourd.20164.125

Aïnhum: Aspects cliniques, radiographiques et thérapeutiques à propos de 3 cas

Amina Nomtondo Ouédraogo¹, Patrick Wendpouiré Hamed Dakouré², Maodo Ndiaye³, Seraphine Zeba/Lompo⁴, Fagnima Traoré⁵, Sayouba Tinto⁶, Sidnoma Muriel Ouédraogo⁷, Patrice Gilbert Tapsoba⁷, Pascal Niamba⁷, Fatou Barro-Traoré⁷, Adama Traoré⁷

¹Department of Dermatology, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Raoul Follereau Dermatology Center, Ouagadougou, Burkina Faso, ²Department of Surgery, High Institut of Health Sciences, Orthopaedics and Traumatology Service, University Hospital Souro Sanou, Bobo Dioulasso, Burkina Faso, ³Departement of Dermatology, Cheick Anta Diop University Dakar, Dermatology clinic, Aristide Le Dantec University Hospital, Dakar, Senegal, ⁴Raoul Follereau Dermatology Center, Ouagadougou, Burkina Faso, ⁵Dermatology Service of Regional Hospital of Ouahigouya, Burkina Faso, ⁶Department of Surgery, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Orthopaedics and Traumatology Service, University Hospital Yalgado Ouédraogo, Ouagadougou, Burkina Faso, ⁷Department of Dermatology, University Ouaga I Professor Joseph Ki-Zerbo, Dermatology Service University Hospital Yalgado Ouédraogo, Ouagadougou, Burkina Faso

Corresponding author: Dr. Amina Nomtondo Ouédraogo, E-mail: nomtondo2000@yahoo.fr

RESUME

L'aïnhum ou dactylolyse spontanée est une condition pathologique rare au cours de laquelle une striction hyperkératosique est formée autour de la partie proximale du 5^{ème} orteil conduisant à son auto-amputation. La maladie intéresse le 5^{ème} orteil de façon unilatérale ou bilatérale. Elle a été rapportée chez les sujets de race noire d'Afrique, mais aussi de l'Amérique du sud, de l'Asie et de l'Inde. Nous rapportons 3 cas d'aïnhum chez des patients burkinabés. Il s'agissait de 3 patients tous de sexe masculin, âgés de 32 à 52 ans, sans notion de tabagisme, ni de pathologie familiale similaire, ni de notion de marche prolongée pied nus, ni de traumatisme antérieur. Ils consultaient soit pour une douleur du 5^{ème} orteil, soit pour un désir d'amputation du 5^{ème} orteil. La durée d'évolution variait de 18 mois à 6 ans. A l'examen, les patients étaient en bon état général et apyrétiques. On notait un anneau de striction de consistance kératosique lâche ou serré enserrant la base du 5^{ème} orteil droit. Les autres extrémités étaient indemnes de toute constriction. La radiographie du pied notait une constriction des parties molles adjacentes chez tous les patients et une atteinte osseuse chez deux patients permettant de poser le diagnostic d'aïnhum. Un traitement chirurgical par plastie en Z ou par amputation était réalisé. L'évolution était favorable et le pronostic fonctionnel n'était pas engagé. L'aïnhum ou dactylolyse spontanée du 5^{ème} orteil est une pathologie rare, plus souvent rapportée chez les sujets de race noire. Le diagnostic est clinique. Le pronostic après le traitement chirurgical est favorable. Ces observations par leur diversité montrent les différents aspects cliniques et évolutifs de l'aïnhum.

Mots clés: Dactylolyse spontanée; Auto-amputation; Plastie en Z; Gangrène sèche

INTRODUCTION

L'aïnhum aussi appelée dactylolyse spontanée est une condition pathologique rare au cours de laquelle une striction hyperkératosique est formée autour de la

partie proximale du 5^{ème} orteil conduisant à son auto-amputation [1]. La maladie intéresse le 5^{ème} orteil de façon unilatérale, mais des cas bilatéraux ont été rapportés [2]. Elle a été décrite chez les sujets de race noire d'Afrique, mais aussi de l'Amérique du Sud et de

How to cite this article: Ouédraogo AN, Dakouré PWH, Ndiaye M, Zeba/Lompo S, Traoré F, Tinto S, Ouédraogo SM, Tapsoba PG, Niamba P, Barro-Traoré F, Traoré A. Aïnhum: Aspects cliniques, radiographiques et thérapeutiques à propos de 3 cas. Our Dermatol Online. 2016;7(4):453-458.

Submission: 17.08.2016; **Acceptance:** 18.09.2016

DOI:10.7241/ourd.20164.125

l'Inde [1,3,4]. Des facteurs infectieux et traumatiques liés à un mode vie rural ont été souvent incriminés dans sa survenue mais actuellement cette théorie semble de moins en moins évoquée [2].

L'histoire naturelle de l'aïnhum peut être décrite en quatre stades différents, allant d'une fissure à la face plantaire du 5ème orteil jusqu'à l'auto-amputation de l'orteil [5]. En dehors des aïnhums vrais d'étiologie inconnue, il existe des pathologies pouvant conduire à des états pseudo-aïnhumoides telles que la kératodermie palmoplantaire héréditaire de Vohwinkel, des maladies acquises comme l'arthropathie goutteuse, la lèpre,, les corps étrangers etc [6,11].

Si le traitement au stade de début fait recours à une plastie en Z, dans les stades avancés, l'amputation spontanée ou chirurgicale reste la seule issue [1,12].

Nous rapportons 3 cas d'aïnhum chez des patients burkinabés, tous de sexe masculin et ne présentant pas de tableau de pseudo-aïnhum des doigts et des orteils.

CASE REPORTS

Patient 1: Monsieur K S était âgé de 32 ans de sexe masculin, sans notion de tabagisme, ni de pathologie familiale similaire, ni de notion de marche prolongée pieds nus, ni de traumatisme antérieur. Il a consulté en dermatologie, pour une constriction du 5ème orteil droit évoluant depuis 6 ans. La lésion aurait débuté par un petit anneau constrictif à la base du petit orteil droit qui se serait lentement élargi, avec des douleurs intermittentes de l'orteil lors du port de chaussures serrées. A l'examen, le patient était en bon état général et apyrétique. On notait un anneau de constriction lâche d'environ 0,5 cm de largeur, de consistance kératosique enserrant la base du 5ème orteil droit (Figs 1 et 2). On notait un intertrigo macéré à la face plantaire de l'orteil. Les autres extrémités y compris le 5ème orteil gauche étaient indemnes de toute constriction. A l'examen neurologique, la douleur n'était pas de type neuropathique. Le reste de l'examen physique était normal ainsi que les examens biologiques (NFS, uricémie, glycémie à jeun, créatininémie, transaminases sériques). La sérologie syphilitique et l'examen du suc dermique à la recherche de bactérie de Hansen étaient négatifs. La radiographie du pied ne notait pas d'atteinte osseuse, mais une discrète constriction des parties molles adjacentes. Le diagnostic d'aïnhum au stade I était posé. Un traitement à base d'antifongique topique et une cure chirurgicale consistant en une

plastie en Z étaient proposés au patient. Le patient était perdu de vue.

Patient 2: Z N âgé de 50 ans, sans notion de tabagisme, ni de pathologie familiale similaire, ni de notion de marche prolongée pieds nus, ni de traumatisme antérieur a consulté en dermatologie, pour des douleurs lancinantes, insomniaques du 5ème orteil gauche, avec une gêne à la marche évoluant depuis 5 ans, mais aggravées depuis quelques mois. A l'examen, le patient était en bon état général et apyrétique. On notait une striction très serrée par une bande kératosique de la base du 5ème orteil gauche (Figs. 3 et 4). L'orteil en aval était noirâtre avec une diminution de la sensibilité tactile et algésique. La partie en amont de la striction était douloureuse à la mobilisation. Les autres extrémités y compris le 5ème orteil droit étaient indemnes de toute constriction. L'examen neurologique ne mettait pas en évidence une douleur neuropathique.



Figure 1: Aïnhum au stade I avec anneau de constriction à la base du 5ème orteil du patient 1.



Figure 2: Iconnographie des deux pieds du patient 1: atteinte du 5ème orteil droit, 5ème orteil gauche intact.

Le reste de l'examen physique était normal ainsi que les examens biologiques (NFS, uricémie glycémie à jeun, créatininémie, transaminases sériques). La sérologie syphilitique et l'examen du suc dermique à la recherche de bacille de Hansen étaient négatifs. La radiographie du pied notait une ostéolyse en regard de la striction ainsi qu'une striction serrée des parties molles. Le diagnostic d'aïnhum stade 3 était posé. Un antalgique était prescrit et une amputation de l'orteil réalisée. L'évolution après traitement était favorable.

Patient 3: Monsieur A C, âgé de 52 ans, sans notion de tabagisme, ni de pathologie familiale similaire, ni de notion de marche prolongée pieds nus, ni de traumatisme antérieur a consulté en orthopédie, pour un désir d'amputation de son 5^{ème} orteil droit qui présentait des douleurs lancinantes, insomniante, avec une gêne à la marche. La symptomatologie était d'aggravation progressive depuis 18 mois. L'examen physique notait une striction de la base du 5^{ème} orteil droit par une bande kératosique très serrée. La partie en aval de l'orteil était globuleuse, déviée de son axe normal et douloureuse à la mobilisation (Fig. 5). Le patient était en bon état général, apyrétique, et les autres extrémités y compris le 5^{ème} orteil gauche étaient indemnes de toute constriction. L'examen neurologique ne mettait pas en évidence une douleur neuropathique. Le reste de l'examen physique était normal ainsi que les examens biologiques (NFS, uricémie, glycémie à jeun, créatininémie, transaminases sériques). La sérologie syphilitique et l'examen du suc dermique à la recherche de bacille de Hansen étaient négatifs. La radiographie du pied notait une ostéolyse en regard de la striction avec une constriction des tissus mous. Le diagnostic d'aïnhum stade 3 était posé, un antalgique prescrit et une amputation réalisée (Fig. 3). L'évolution après traitement était favorable.

DISCUSSION

La première description d'aïnhum a été faite en 1860 par Clarke, comme étant une gangrène sèche du petit orteil survenant chez des sujets originaires d'Afrique de l'Ouest [2]. En 1867, Da Silva Lima et Wucherer ont introduit le terme d'«aïnhum» tiré d'un dialecte d'Afrique et signifiant «vu» [13]. Il intéresse le 5^{ème} orteil, fait d'une constriction fibreuse, kératosique enserrant le pli plantaire de l'orteil y créant une douleur lancinante. La constriction est légère au stade I de début, comme chez notre premier patient. Cette bande constrictive va progressivement se resserrer, donnant



Figure 3: Iconographie du pied gauche du patient 2 montrant l'aïnhum au stade 3.



Figure 4: Iconographie du patient 2 montrant l'aïnhum sur une vue de la face plantaire du pied.



Figure 5: Iconographie du patient 3 montrant l'aïnhum stade 3, avant et après amputation.

les stades 2 et 3 (cas de nos patients 2, 3) créant une gangrène sèche de l'orteil, jusqu'à l'amputation complète de l'orteil, correspondant au stade 4 [2]. Une atteinte osseuse est retrouvée dans les derniers stades, tandis que la constriction des parties molles est observée dans tous les cas [2,14,15].

Laïnhum constitue une affection rare puisque quelques cas sont rapportés dans la littérature [2,14,16]. Il survient principalement chez les sujets d'ascendance africaine et majoritairement de sexe masculin comme observé chez nos patients. Cependant, dans la série de 3 cas rapportés par de Koudoukpo, tous les malades étaient de sexe féminin [12]. Le diagnostic est souvent tardif en milieu tropical, après une durée d'évolution moyenne supérieure à 18 mois chez nos malades. Et ceci s'expliquerait par le fait que les malades ne consultent qu'au stade de douleur invalidante.

Aucun de nos malades ne présentait de facteurs traumatiques susceptibles de créer une striction du 5ème orteil et d'autres lésions à distance pouvant s'intégrer dans le cadre d'une maladie générale. En effet, en zone tropicale devant toute mutilation spontanée de membre, il est important d'éliminer la maladie de Hansen ou une syphilis dans sa phase tardive. En outre, l'absence d'arthropathie chez nos malades et le taux normal de l'uricémie éliminaient le diagnostic d'une goutte.

Le pseudo-aïnhum peut survenir également dans les maladies de système à tropisme articulaire et vasculaire comme le lupus systémique, la sclérodermie systémique, la polyarthrite rhumatoïde et/ou les troubles de vascularisation des extrémités liés au diabète . Ces pathologies n'ont pas été retrouvées chez nos malades. De plus, il est important d'éliminer les tableaux de pseudo-aïnhums qui peuvent être retrouvés dans plusieurs troubles de la kératinisation tels que les kératodermies palmoplantaires congénitales ou acquises, le syndrome de Vohwinkel [10,11] la maladie de Papillon-Lefèvre [8], le mal du syndrome Méléda, l'hyperkératose acral focale dans le pityriasis rubra pilaire et la porokératose de Mibelli [7]. Souvent le caractère transgrédient ou progrédient, l'existence de lésions à distance et des cas similaires au sein de la famille y sont souvent associés.

L'étiopathogénie de l'ainhum n'est pas encore bien élucidée, mais plusieurs hypothèses ont été émises:

-une production accrue de fibroplastes en réponse à un stimuli excessif lors d'infections ou de traumatismes répétés [14].

-une fibrose localisée formant une bande de collagène constrictive en réponse à des lésions tissulaires d'inflammation chronique, ou d'un processus de cicatrisation de l'orteil [7,17]. -une anomalie de

la vascularisation du calcanéum par l'artère tibiale postérieure [5].

La prise en charge thérapeutique de l'ainhum est chirurgicale. Elle fait recours à une plastie en Z au stade de début. Dans les stades avancés, l'amputation est de mise [18,19], et le patient peut être lui-même demandeur de cette amputation « salvatrice » devant la douleur intense, insomniaante comme noté chez notre dernier patient. Malgré le risque de récidive après la plastie en Z, le pronostic fonctionnel n'est généralement pas engagé [18]. En effet, l'amputation aboutissant à une absence du dernier orteil ne gêne ni la marche, ni la station debout car l'appui du pied se fait sur le métatarsé et le gros orteil.

CONCLUSION

Laïnhum ou dactylyse spontanée du 5^{ème} orteil est une pathologie rare, plus souvent rapportée chez les sujets de race noire, mais également en Asie et en Inde . Le diagnostic positif est clinique. La radiographie permet mettre en évidence la constriction des parties molles et d'apprécier le degré de l'atteinte osseuse. Le traitement est chirurgical. Le pronostic fonctionnel est bon après traitement. L'intérêt de nos cas réside en leur diversité montrant les différents aspects cliniques et évolutifs du aïnhum.

RÉFÉRENCES

- Cole GJ. Ainhum: an account of fifty-four patients with reference to etiology and treatment. *J. Bone Joint Surg.* 1965;47:43-51
- Browne SG. Ainhum: a clinical and etiological study of 83 cases. *Ann Trop Med Parasitol.* 1961;55:314-20.
- Jemmett T, Foster A V, Edmonds ME. An unusual cause of ulceration: ainhum (dactylysis spontanea). *Int Wound J.* 2007;4:251-4.
- Prabhu R, Subbaraju N K, Vinoth S, Balasubramanian C. Ainhum - A rare case report. *J Clin Diagn Res.* 2016;10:17-8.
- Carvalho N, Silveira J, Rodrigues L, Tirado A, Ferreira M. Ainhum (Dactylysis spontanea): a case report. *Foot Ankle Surg.* 2000;6:189-92.
- Kanitakis J, Tsoitis G, Kanitakis C. Hereditary epidermolytic palmoplantar keratoderma (Vörner type): report of a familial case and review of the literature. *J Am Acad Dermatol.* 1987;17: 414-22.
- Hohl D, Görög J P. Kératodermies palmoplantaires. *Encycl Méd Chir Dermatologie.* 1999;98-205-A10,18.
- Mashhood A A, Humayun A, Saleem M, Arshi I. Papillon-Lefèvre syndrome associated with pseudoainhum. *J Am Acad Dermatol.* 2004;51:134-6.
- Mrabet D, Monastiri I, Elleuch M, Meddeb N, Sellami S. Pseudoainhum in gout: A Case-Report. *Joint Bone Spine.* 2010;77:368-9.
- Cavalcante L I de S, Holanda É de M, Almeida TLP de, Accioly-Filho J. W.Vohwinkel's mutilating keratoderma: report of

- three familial cases. An Bras Dermatol. 2003;78: 311-8.
11. Choudhary N, Ahar R, De A, Biswas P. Vohwinkel's syndrome: A rare disorder of keratinization. Indian J Dermatol. 2014;59:619.
 12. Koudoukpo C, Bourrat E, Rausky J, Yédomon H, Bagot M, Blanchet-Bardon C, et al. Aïnhum et «kératodermies acrales africaines»: trois cas. Ann Dermatol Vénéréol. 2015;142,170-5.
 13. Da Silva Lima JF. On aïnhum. Arch Dermatol. 1880;6:367.
 14. Daccarett M, Espinosa G, Rahimi F, Eckerman CM, Wayne-Bruton S, Couture M, et al. Aïnhum (dactylysis spontanea): a radiological survey of 6000 patients. J Foot Ankle Surg. 2002;41:372-8.
 15. Barve DJ, Gupta A. Aïnhum: A Spot Diagnosis. Indian J Surg. 2015;77:1411-2.
 16. Bergner LH Winfield JM. Aïnhum (dactylysis spontanea): Review of the literature and report of a case. Am J Surg. 1960;100:480-5.
 17. Morand JJ, Lightburn E. Aïnhum et pseudo-aïnhum. Panorama clinique et hypothèses étiopathogéniques. Méd Trop. 2002;62:166-70.
 18. Maruis KF, Cedrick SM, Mireille KZ, Felix MJ. Maladie d'Aïnhum (dactylysis spontanée): à propos d'un cas Clinique. Pan Afr Med J. 2014;19:60.
 19. Roesch A, Kinner B, Schaechinger U, Obermann EC, Landthaler M, Hohenleutner U. A woman with a dangling digit. J Dtsh Dermatol Ges. 2007;11:1008-9.

Copyright by Amina Nomtondo Ouédraogo, et al. This is an open access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited.

Source of Support: Nil, **Conflict of Interest:** None declared.