

Études paléopathologiques de cas d'une atteinte rachidienne rare : les vertèbres en papillon

Palaeopathological studies of butterfly vertebra, a rare spinal malformation

Y. Ardagna · S. Kacki · E. Verna · M. Panuel · M. Baud[†]

Reçu le 6 septembre 2013 ; accepté le 3 décembre 2013
© Société d'anthropologie de Paris et Lavoisier SAS 2014

Résumé Les vertèbres dites en papillon (*sagittal cleft vertebrae*) sont consécutives à un défaut de fusion du corps vertébral plus ou moins étendu. Cette anomalie du développement (diastématomyélie de type 1 ou *rachischisis* antérieur), qui implique généralement une seule vertèbre, peut induire une division complète du corps vertébral en deux hémivertèbres de forme triangulaire. Une revue de la littérature fait apparaître que cette anomalie est encore assez peu décrite en paléopathologie. Notre étude contribue à la connaissance de cette malformation rachidienne dans les populations du passé, par la présentation de sept cas inédits provenant de contextes funéraires de chronologie et d'origine géographique variées. L'un d'entre eux représenterait le premier cas paléopathologique égyptien de vertèbre en papillon. L'étude illustre la grande diversité d'expression des vertèbres en papillon en contexte ostéoarchéologique, notamment dans leur forme la plus bénigne, asymptomatique et sans complication associée. Ce travail livre de nouveaux témoignages d'une pathologie qui, en raison de son origine congénitale, peut être autant un élément de description individuelle qu'un outil d'identification des éventuels liens d'apparentement.

Mots clés Vertèbre en papillon · Rachischisis · Malformation congénitale · Paléopathologie

Abstract Sagittal cleft (or “butterfly”) vertebra is a more or less extensive developmental anomaly in the fusion of the vertebra. Also known as *diastematomyelia* or *anterior rachischisis*, this anomaly usually involves a single vertebra, which can become segmented into two separate triangular shapes resembling the wings of a butterfly. We found that this sagittal cleft is rarely described in palaeopathology literature. This paper presents a study of 7 original cases from different chronological and geographical burial contexts, one of which could be the first palaeopathological evidence of this condition in ancient Egypt. Our study shows the wide range of morphological variability in osteo-archaeological expressions of this anomaly, from minor asymptomatic clefts with no associated complications to complete segmentation associated with compensatory changes in adjacent vertebrae. It thus contributes new knowledge on this spinal malformation in ancient populations, providing new illustrations of a pathological condition which, due to its congenital origin, can serve not only as a descriptor of individuals but also as a means of identifying potential kinships.

Y. Ardagna (✉) · E. Verna · M. Panuel
Laboratoire UMR 7268 - ADÉS - Anthropologie bio-culturelle,
Droit Ethique et Santé, Aix-Marseille Université – EFS-CNRS,
Faculté de Médecine de Marseille, Secteur Nord,
Batiment A - CS80011, Bd Pierre Dramard,
13344 Marseille cedex 15
e-mail : yann.ardagna@univ-amu.fr

S. Kacki
PACEA, UMR 5199, Anthropologie des Populations Passées
et Présentes, Université Bordeaux 1, Talence

M. Panuel
Service d'Imagerie Médicale Hôpital Nord de Marseille

M. Baud[†]
Département des Antiquités Égyptiennes, Musée du Louvre,
Paris, France

Keywords Rachischisis · Palaeopathology · Butterfly vertebra · Congenital anomaly

Introduction

Les vertèbres dites « en papillon » (« *sagittal cleft vertebrae* » ou *rachischisis* antérieur) font partie des malformations congénitales du rachis à type vertèbres aplasiques antérieures et binucléées [1,2]. Elles résultent d'un défaut de fusion entre les deux noyaux mésenchymateux des corps vertébraux durant l'embyrogénèse. Ce phénomène aurait lieu autour de la 6^e semaine de grossesse [3,4]. Les vertèbres en papillon peuvent être associées à divers syndromes, au

premier rang desquels le syndrome d'Alagille (mais également les syndromes de Pfeiffer, de Jarcho-Levin ou de Crouzon) ainsi qu'à des délétions chromosomiques [4-8]. L'étiologie reste encore inconnue toutefois un lien génétique est très fortement suspecté depuis les années 1980 sans avoir encore pu être clairement identifié [9-20]. En dehors de ces associations, les vertèbres en papillon peuvent demeurer durablement asymptomatiques [4,5,8,10] et ne sont alors détectées qu'incidemment [7]. Dans certains cas, toutefois, la diminution de la hauteur du rebord marginal induite par le *rachischisis* antérieur peut perturber la statique rachidienne et conduire à certaines complications, parmi lesquelles des déformations scoliotiques (p. ex. cyphoscoliose évolutive) et des douleurs [2,6,11].

Du point de vue lésionnel, cette forme de *rachischisis* est décrite dans la littérature médicale comme affectant la seule région antérieure des vertèbres. Elle se caractérise par la présence d'une fente sagittale du corps vertébral [1], tandis que l'arc postérieur demeure indemne. Cette malformation rachidienne livre divers « degrés » de séparation, pouvant aller d'une simple dépression sagittale en gouttière (ou invagination) à une véritable fente sagittale (« complete cleft »), provoquant une division du corps vertébral en deux hémivertèbres (Fig. 1) de forme triangulaire à sommet interne

[1,3,6]. Ces hémivertèbres sont latérales et généralement équivalentes en taille [1,3] conférant à la vertèbre cette image radiologique en « ailes de papillon ».

L'espace entre les hémivertèbres peut être comblé par un tissu cartilagineux, dont la présence se traduit en imagerie par une mince bande radiotransparente (Figs. 1, 2) ou « nœud de papillon » [1]. Ces anomalies sont observés plus fréquemment de manière isolée et ce pour tous les segments rachidiens. Cependant les étages thoraciques et lombaires sont plus généralement concernés tandis que la première vertèbre sacrée resterait une localisation très inhabituelle selon la littérature médicale [8,12].

On note également des associations avec d'autres atteintes rachidiennes d'origine congénitale comme la *spina bifida occulta*, les blocs congénitaux, les anomalies transitionnelles ou les vertèbres surnuméraires provoquant une division en deux hémivertèbres du corps vertébral.

Les publications médicales s'accordent pour attribuer la découverte de cette malformation congénitale à l'anatomopathologiste viennois Von Rokitabsky au milieu du XIX^e siècle [11-13]. Quant à sa fréquence dans la population générale aucune valeur consensus n'est publiée.

Les vertèbres en papillon sont tantôt décrites comme une « anomalie fréquente » [1], tantôt comme un désordre

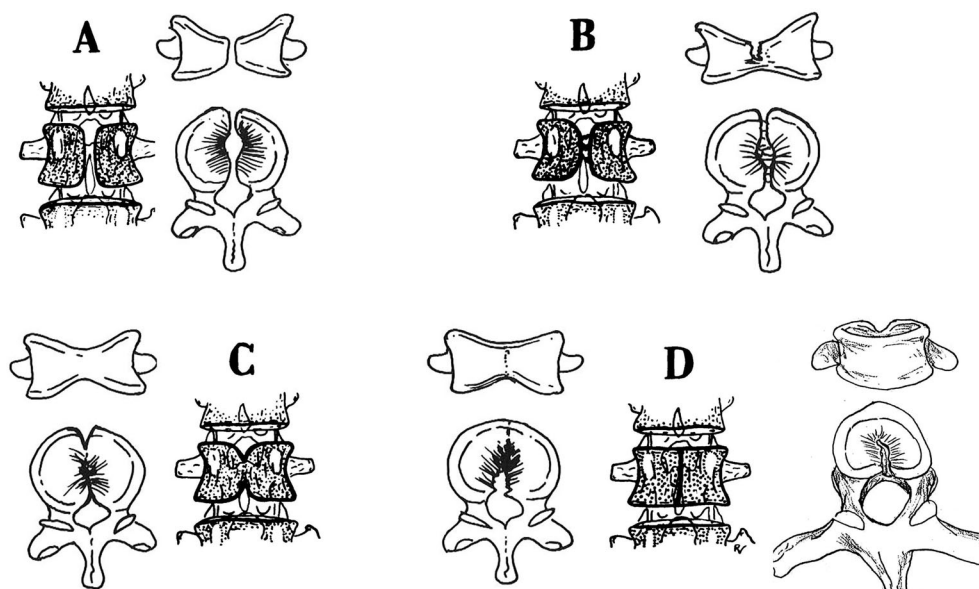


Fig. 1 Variation de l'expression du rachischisis antérieur d'après les représentations radiologiques de Fischer et Vandemark (Fischer et Vandemark 1945, p. 698, fig 3) et les schémas paléopathologiques de Barnes (Barnes 1994, p. 37 fig. 3.1 ; Barnes 2012, p. 77 fig. B5 1.1). La dépression sagittale peut être large, étendue, séparant clairement les deux hémivertèbres (A), les deux hémivertèbres peuvent être reliés par de fines spicules osseuses (B), un pont osseux peut unir antérieurement les deux hémivertèbres (C), la dépression sagittale peut être linéaire, peu profonde, fine et discrète (D) / *Variable expression of rachischisis based on radiological imagery from Fischer and Vandemark (1943, p.698 fig 3) and the palaeopathological diagrams of Barnes (Barnes 1994 p 37 Figure 3.1 and Figure B5 1.1 2012 p77). (A): broad sagittal depression, clearly separating the two hemi-vertebrae; (B) two halves of a vertebra connected with fine bone spurs; (C) bony bridge joining the two halves; (D) shallow, thin and discrete linear depression*

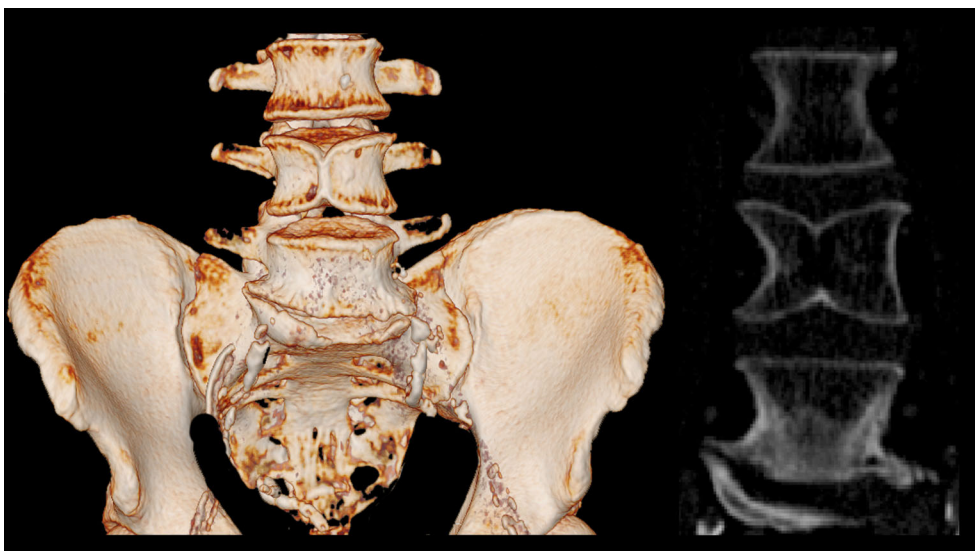


Fig. 2 Reconstruction en vue antérieure des vertèbres lombaires (logiciel Avizo[®]) et détail radiologique en coupe sagittale de la quatrième vertèbre lombaire d'un homme de 59 ans. Un pincement marginal en forme de cône symétrique des plateaux vertébraux supérieurs et inférieurs est observé. Une crête osseuse antérieure surligne sagittalement cet effondrement symétrique des plateaux, en reliant les extrémités antérieures des invaginations. Sans être séparée en deux parties distinctes, le corps vertébral semble divisé en deux fragments, suggérant des « ailes de papillon ». Aucune complication n'est par ailleurs observable au niveau des éléments rachidiens sus- et sous-jacents. Source : APHM, Hôpital Nord, Marseille / *Reconstruction (Avizo[®] software) of the fourth lumbar vertebra of a 59 year-old man (anterior view) and radiological detail (sagittal view). A symmetrical cone-shaped indentation is visible on the anterior margin of the upper and lower endplates, underlined by an anterior bony crest. Without being separated into two distinct parts, the vertebra appears to be divided into two parts shaped like the wings of a butterfly. No adjacent compensatory complications are visible. Source: APHM, Hôpital Nord, Marseille*

congénital peu commun – comparativement aux autres anomalies congénitales du rachis [4,14] –, voire extrêmement rare [5,8]. A cet égard, il faut souligner que l'anomalie reste longtemps asymptomatique et par conséquent faiblement détectée en clinique [4], quand elle n'est pas confondue avec d'autres atteintes, notamment traumatiques, infectieuses ou métastatiques [5,14,15]. En somme sa fréquence dans la population générale reste difficile à estimer, elle serait néanmoins plus élevée chez les hommes que chez les femmes [6,16,17].

En paléopathologie, le rachis constitue la région anatomique de prédilection pour l'identification des anomalies développementales. Pour autant, cette catégorie de défaut de fermeture du corps vertébral demeure une lésion peu décrite dans la littérature, en dehors des analyses diagnostiques ou terminologiques de fond [6,16] ou d'études de certaines populations particulières [18]. Toutefois, une revue détaillée de la littérature (Tableau 1) démontre l'augmentation du nombre de cas publiés depuis une dizaine d'années [9,12,19]. Des cas de vertèbres en papillon sont aujourd'hui connus pour les périodes antique, médiévale et moderne.

L'objectif de cette note est de décrire des cas inédits de vertèbres en papillon. Ces nouveaux témoins de la présence de la pathologie dans les populations anciennes permettent

d'illustrer davantage l'expression lésionnelle et notamment sa forme la plus mineure.

Critères diagnostics et description de cas paléopathologiques inédits

Les éléments du diagnostic paléopathologique, sont axés sur la présence de la fente sagittale dont ils font apparaître, à l'instar de la pratique clinique, une grande diversité d'expression. Laquelle comporte une sorte de « gradient » de la dépression antérieure du corps vertébral. Ce degré d'atteinte va de la fine fente sagittale associée à une gouttière peu profonde traversant les plateaux vertébraux de manière antéro-postérieure, à la lésion beaucoup plus étendue, entraînant la séparation complète du corps en deux hémivertèbres. D'autres éléments de l'approche paléopathologique sont issus des notions de la littérature médicale adaptées à l'ostéoarologie. Notamment la localisation préférentielle et le diagnostic différentiel presque exclusif avec les fractures de compression du rebord antérieur qui confère à la vertèbre un aspect cunéiforme parfois difficile à interpréter en imagerie [12]. Ce manque de paramètres dans le diagnostic différentiel est à mettre en relation avec la rareté de la lésion en clinique et

Tableau 1 Cas paléopathologiques de vertèbres en papillon reportés dans la littérature/ *Paleopathological evidences of Butterfly vertebra from the litterature.*

Sexe	Age	Topographie	Provenance	Datation	Source
?	15-19	?	USA (Arizona)	1150-1450 AD	Regan et al 1996 in [18]
	Immature	C3 ?	Canada (Ontario)	Epoque moderne ?	Anderson 1963 in [18]
M	Adulte	C5	Portugual	XIII-XV ^e	[8]
M	Adulte	T5 et T8	Sadlermuit (Canada)	1902-3	[18]
?	Adulte	T6	USA (Nouveau Mexique)	“late Pueblan”	Rocek et Speth in [6]
F	Adulte	T7	Sadlermuit (Canada)	Epoque moderne	[18]
M	Adulte	T8	Sadlermuit (Canada)	Epoque Moderne	[18]
F	Adulte	T8	Pérou	XI-XV ^e	Mann et Verano 1990 in [18]
?	5-9 ans	T8 et T10	Sadlermuit (Canada)	1902-1903	[18]
?	5-9 ans	T8 et T10	Sadlermuit (Canada)	1902-1903	[18]
?	Adulte	T9 et T12	Canada (Ontario)	1450 AD	[21]
?	Mature	T basse	Siberie	V-VI ^e Av J.C.	Rokhlin 1965 in [18]
?	Adulte	T11	USA (Virginie)	XVII ^e	[6-16]
M	Adulte	T11	Hongrie	VII-IX ^e	[19]
M	45-55	T12	Royaume uni	Epoque médiévale	[9]
M	Adulte	L1	Hongrie	VIII ^e	[19]
F	Adulte jeune	L5	Bulgarie	III-V ^e Av J.C.	[20]
?	55 ans	L5 et S1	Italie (1844)	XIX ^e	[12]
F	36 ans	L5 et S1	Italie (1844)	XIX ^e	[12]
M	Adulte	S1	Hongrie	IV-V ^e	[20]

la spécificité de la fente sagittale. Ce sont plutôt les autres descriptions paléopathologiques (par exemple les destructions osseuses liées une lyse associée à un collapsus vertébral) qui tiendraient peu compte des vertèbres en papillon. Après une analyse de la littérature (Fig. 1) et notamment des travaux *princeps* de Barnes (1994, 2012) et de Merbs (2004), nous avons pu proposer six principaux critères comme fondements du diagnostic :

- Présence d'une fente sagittale (complète ou partielle) au niveau du corps vertébral. Elle n'est pas accompagnée d'effondrement ni d'aplatissement antérieur du corps, contrairement à ce qui est observé dans les traumatismes vertébraux (p. ex. fracture de compression du rebord antérieur ou « wedge fracture »). La fente sagittale peut donc conduire à la division complète du corps en deux hémivertèbres, alors de forme triangulaire et majoritairement de taille comparable [6,9,12,16].
- Les vertèbres en papillon sont observées préférentiellement au niveau thoraco-lombaire [6, 16] mais des cas sont décrits sur L5 et/ou S1 [9,12,19],
- Une variante mineure de la dépression sagittale [12], avec une gouttière linéaire, centrale plus ou moins profonde [16] est également envisageable,
- L'arc postérieur est généralement intact, sans fissure associée à la fente sagittale antérieure [9,12]. De même, les facettes articulaires des vertèbres touchées demeurent indemnes [20],

- L'anomalie est fréquemment isolée, ne participant pas aux critères diagnostics d'un syndrome congénital ou développemental. Plusieurs vertèbres peuvent toutefois être touchées sur un même rachis [9,10,12,18],
- En paléopathologie, cette malformation n'est pas irrémédiablement associée à des séquelles compensatoires observables sur le reste du rachis [12,20,21].

Outre la synthèse diagnostique de cette malformation rachidienne, notre travail a permis de décrire sept nouveaux cas de vertèbres en papillon de provenances géographiques et de datations diverses (Tableau 2). Ce corpus illustre les six principaux critères de diagnostic et souligne la diversité d'expression paléopathologique comme l'existence d'une variante bénigne de l'atteinte (simple dépression sagittale avec invagination peu profonde). En effet, les sept cas sont présentés selon ce gradient d'ouverture de la dépression sagittale, de l'aspect le plus marquant à la forme la plus bénigne.

Fente sagittale avec hémivertèbres, cas n°1 : SP 3089 – cimetière moderne des Tanneurs (Lille, Nord)

Une opération de fouille préventive réalisée par l'Inrap durant l'hiver 2000-2001 a conduit à la mise au jour d'une partie du couvent des Pauvres Claires, installé dans le quartier de l'îlot des Tanneurs en 1453. L'intervention a permis la

Tableau 2 Cas de vertèbres en papillon constituant notre corpus / <i>Paleopathological specimens identified in our study.</i>						
Cas	Sexe	Age	Topographie	Provenance	Datation	Forme de l'atteinte
1	?	Adulte	T10	Lille (Nord)	Période moderne (fin XV-XVIII ^e s.)	Hemi-vertèbres séparées
2	?	[10-14]	S1	Poitiers (Vienne)	Période moderne (XIX ^e s.)	Hémi-vertèbres asymétrique séparées + probable complication L5
3	F	Adulte	L5-S1	Saqqara (Le Caire)	Basse Epoque (VII-IV ^e Av J.C.).	Dépression avec gouttière centrale, linéaire peu profonde
4	?	Adulte	L5	Saint Quentin (Gard)	Antiquité (III-V ^e s. ap. J.C.)	Dépression avec gouttière centrale, linéaire peu profonde et pont osseux antérieur
5	H	Adulte	L5	Orléans (Loiret)	Moyen Age (X-XII ^e s.)	Dépression avec gouttière centrale, linéaire peu profonde et pont osseux antérieur
6	H	Adulte	S1	Laudun (Gard)	Moyen Age (IX-XIV ^e s.)	Dépression avec gouttière centrale, linéaire peu profonde
7	F	Adulte	S1	Paris (Ile de France)	Série anatomique contemporaine	Dépression avec gouttière centrale, linéaire peu profonde

fouille quasi-exhaustive de l'église rattachée à cette occupation religieuse, ainsi que des nombreuses sépultures implantées durant la période moderne [22]. L'une de ces tombes a livré les restes squelettiques d'un sujet adulte de sexe indéterminé porteur d'une vertèbre en papillon. Le corps de la dixième vertèbre thoracique de ce sujet adulte présente en effet une dépression centrale affectant son rebord antérieur ainsi que ses plateaux supérieur et inférieur dans le plan

sagittal (Fig. 3). Le corps vertébral est ainsi scindé en deux parties latérales de taille sensiblement équivalente, tandis que l'arc postérieur reste indemne. Les vertèbres sus- et sous-jacente présentent des déformations du rebord marginal (de type indentation superficielle) qui viendraient combler l'espace libéré par la dépression de T10 [15,23]. Le rachis présente, par ailleurs, d'autres anomalies thoraco-lombaire, notamment transitionnelles (vertèbre surnuméraire et

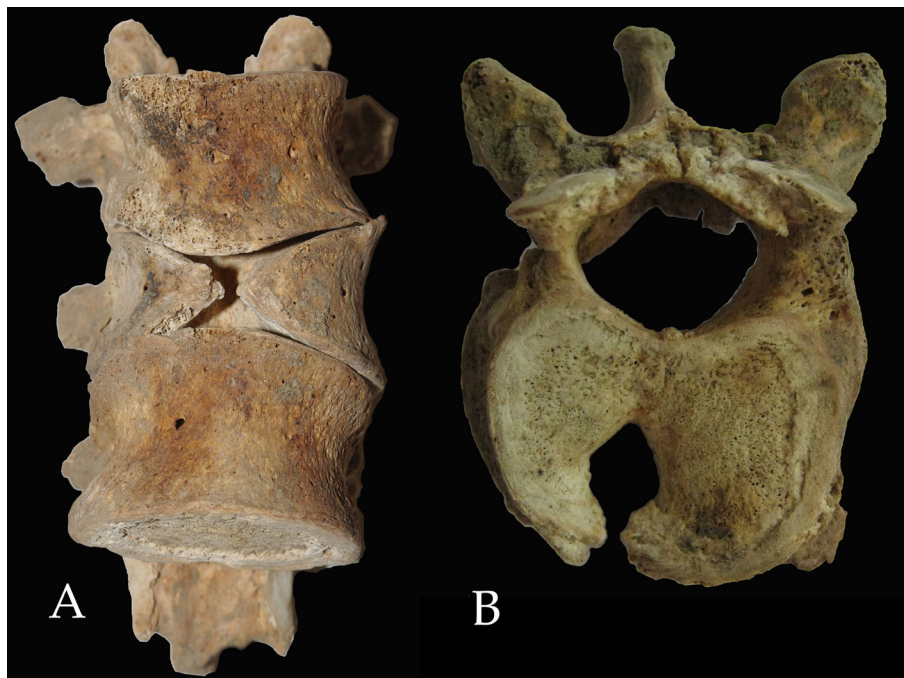


Fig. 3 Cas N°1 avec : (A) Vue antérieure de T9, T 10 et T11. (B) Vue supérieure de T 10 / *Case N°1 with (A) Anterior view of T9, T 10 and T11; (B) Superior view of T 10*

dernière lombaire sacralisée). Dans le cas du cimetière des Tanneurs, la fente induit une séparation complète du corps qui n'est pas accompagnée de complications statiques du rachis. Ce premier cas rappelle, selon la nomenclature de Barnes (Fig. 1A), les atteintes les plus complexes de la littérature [18,20], tant par la localisation thoracique que par la séparation du corps sur toute sa hauteur.

Fente sagittale avec héli-vertèbres, cas n°2 : SP 1124 – Cimetière moderne Saint-Hilaire (Poitiers, Vienne)

Le second cas étudié provient d'un site fouillé par l'Inrap entre 2007 et 2008 à proximité immédiate de l'église Saint-Hilaire, au sein de l'enclos de la collégiale du même nom. Cette intervention a permis de dévoiler une partie de l'occupation funéraire et religieuse aux abords de la basilique Saint Hilaire, de sa fondation au IV^e s. à son abandon à la fin du XVIII^e s. [24]. A la suite du démantèlement de la collégiale au sortir de la Révolution Française, l'espace du cloître fut réutilisé en qualité de cimetière paroissial, une partie duquel a également pu être appréhendé lors de l'intervention archéologique. C'est à cette dernière occupation funéraire que ce rattache l'individu immature intégré à notre corpus. Ce sujet présente une fente sagittale sur la première vertèbre sacrée. La dépression traverse le corps depuis le plateau supérieur. Comme dans le cas précédent, la vertèbre est divisée en deux parties, mais ces dernières diffèrent par leur taille et leur forme (Fig. 4) un pendage (de la droite vers la



Fig. 4 Cas N°2 Vue antérieure du sacrum / Case N°2, anterior view of the sacrum

gauche) du plateau de S1 conférant une forme asymétrique à ce sacrum. Cette caractéristique n'est pas incompatible avec le diagnostic de vertèbre en papillon, plusieurs auteurs ayant décrit des cas de fente sagittale avec hypoplasie partielle d'une des deux héli-vertèbres [6,12]. Aucune lésion n'est relevée sur l'arc postérieur de S1. Cependant, une spondylolyse isthmique unilatérale gauche est présente sur la cinquième vertèbre lombaire. Cette rupture de continuité de l'arc neural pourrait être reliée à un phénomène de compensation biomécanique de l'asymétrie de la première vertèbre sacrée, d'une manière comparable à ce qui est décrit consécutivement à des *spina bifida occulta* ou des hyperlordoses [25,26].

Dépression sagittale avec invagination sur deux vertèbres consécutives, cas n°3 : US 3001 – Cimetière d'Akhetetep à Saqqara (Région du Caire, Egypte)

La fouille du cimetière d'Akhetetep à Saqqara, conduite en 2010 par le département des antiquités égyptiennes du Musée du Louvre, a mis au jour des niveaux de Basse Epoque [27,28]. Ceux-ci comprenaient deux tombes jumelles en brique crue (Fig. 5). L'une voûtée, incomplète car pillée anciennement renfermait un sujet adulte de sexe féminin (US 3001). L'autre tombe de l'ensemble prend la forme d'un mastaba de taille réduite afin d'abriter le corps d'un nourrisson (US 3002) enveloppé dans un linceul [28]. Le squelette du sujet adulte de sexe féminin présente, au niveau de L5 et S1, une dépression centrale compatible avec un diagnostic de vertèbre en papillon (Fig. 6). Un pincement sagittal de L5 est accompagné d'une invagination en gouttière superficielle du plateau sur toute la longueur du corps vertébral. Ce même aspect invaginé est aussi observé au niveau de la partie postérieure du corps vertébral de L5. En revanche, la partie inférieure du plateau n'est pas touchée. Sur S1, l'invagination du rebord marginal, similaire à celle de L5, est aussi associée sur toute la longueur du corps vertébral à une gouttière médio-sagittale. Aucune lésion n'a été observée sur les arcs postérieurs de la charnière lombo-sacrée. De même, aucun élément suggérant une compensation ou des complications n'a été observé.

Le cas n°3 présente un cas asymptomatique, lombo-sacrée très équivalent à celui décrit par Brasili [12] et compatible avec une morphologie décrite dans la littérature (Fig. 1D). La forme de l'atteinte pourrait être qualifiée de mineure en l'absence de réelle division du corps, d'effondrement du rebord marginal et d'autres anomalies rachidiennes associées. Cette variante lésionnelle est la plus largement représentée dans notre corpus. Par ailleurs, ce cas pourrait être le premier exemple de vertèbre papillon rapporté pour l'Egypte ancienne. En effet, plusieurs analyses paléopathologiques



Fig. 5 Les tombes jumelles en briques. A gauche, US 3001 avec le reliquat de la voûte et le squelette tronqué en raison du pillage. A droite, le petit « mastaba » abritant un nouveau-né, en cours de fouilles. Photo C. Descamps Musée du Louvre / *The twin brick tombs. On the left (US 3001), remains of the arch with adult skeleton truncated due to looting. On the right (US 3002), the small “mastaba” tomb of a newborn during excavation. Photo C. Descamps, Musée du Louvre*

récentes se sont attachées à caractériser les anomalies congénitales du rachis au sein de grandes séries égyptiennes [29,30] mais aucun cas de vertèbres en papillon n'avait encore été identifié à ce jour.

Dépression sagittale avec invagination, gouttière et crête osseuse antérieure, cas n°4 : US 4013 – Site de Roquiésis (Saint Quentin la Poterie, Gard) – Adulte de sexe indéterminé

L'intervention sur le site de Roquiésis a mis au jour un habitat de l'Antiquité tardive implanté à proximité d'une carrière de meules. Le mobilier découvert sur le site suggère une occupation durant de la période tardo-républicaine, aux VI^e-VII^e s. ap. J.-C. Une petite zone funéraire plus ancienne a, en outre, été identifiée [31]. Elle consiste en une tombe monumentale de facture soignée, portant les traces d'un pillage ancien. Autour de celle-ci, les fouilles ont livré des sépultures d'enfants en amphore et deux tombes doubles. L'une d'entre-elles, partiellement détruite, renferme le sujet US 4013 dont la L5 présente une fine dépression medio-sagittale évoquant une vertèbre en papillon (Fig. 7).

La lésion prend la forme d'un « pincement » symétrique du rebord des plateaux supérieur et inférieur. Au niveau du corps, s'observe une gouttière qui traverse la partie supérieure du corps vertébral (trop altérée par des processus taphonomiques la partie inférieure était inobservable). Sur la partie antérieure du corps, un pont en forme d'éperon osseux rejoint les

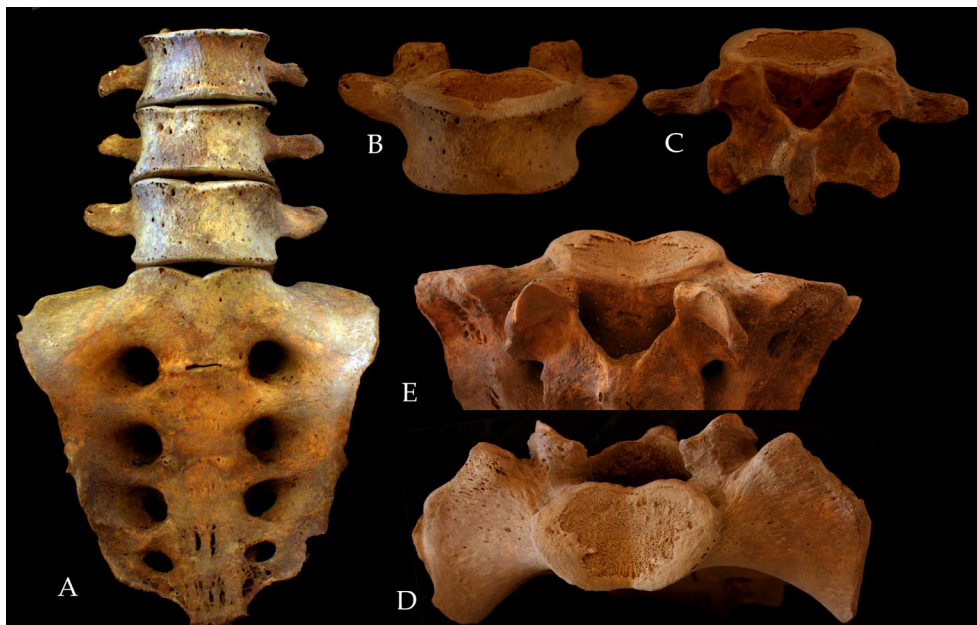


Fig. 6 (A) Vue antérieure de la charnière lombo-sacrée de US 3001. (B) Vue antérieure de L 5, (C) Vue postérieure de L5, (D) Vue supérieure de S1 et (E) Vue postérieure de S1 / (A) *Anterior view of the lumbo-sacral region of the spine, US 3001; (B) Anterior view of L 5; (C) Posterior view of L5; (D) Superior view of S1; (E) Posterior view of S1*

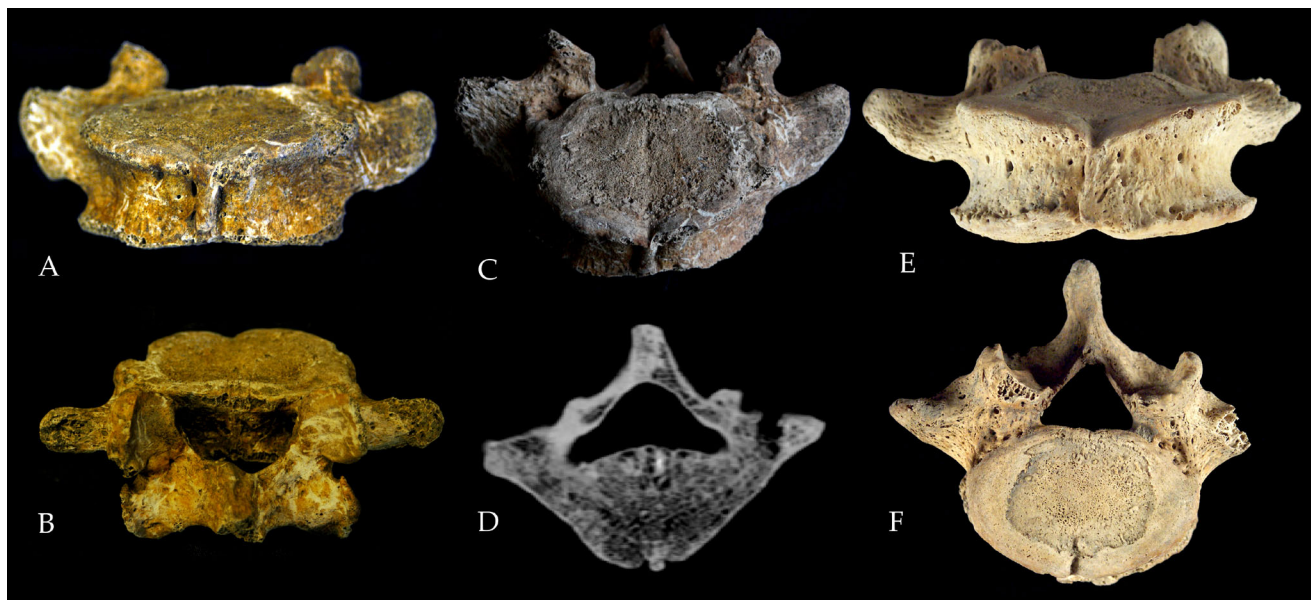


Fig. 7 A gauche, cas n°4 : vue antérieure de L5 (A), vue postérieure L5 (B), vue supérieure L5 (C) et coupe tomодensitométrique de L5 (D). A droite, cas n°5 : vue antérieure de L5 (E) et postérieure de L5 (F) / *Left, case n°4: anterior view of L5 (A); posterior view of L5 (B); superior view of L5 (C); CT scan of L5 (D). Right, case n°5: anterior view of L5 (E) and posterior view of L5 (F)*

extrémités de la dépression (Fig. 7). Pour ce cas, aucune autre lésion signalant une éventuelle compensation ni aucun signe de complication n'est relevé, ce qui témoigne du caractère mineur et asymptomatique de la lésion.

Dépression sagittale avec invagination, gouttière et crête osseuse antérieure, cas n°5 : SP 6030 – Cimetière médiéval de la Madeleine (Orléans, Loiret) – Homme adulte

Le réaménagement du quartier de l'Europe et la construction du pont du même nom ont motivé la réalisation de plusieurs fouilles archéologiques préventives de grande ampleur entre 1998 et 2007 [32]. Ces interventions, menées consécutivement par des équipes d'archéologues de l'AFAN et de l'Inrap, ont permis de mettre au jour, outre les vestiges d'un prieuré fontevriste, les bâtiments et le cimetière d'un établissement hospitalier en usage entre le X^e s. et le début du XII^e s. [33]. L'un des défunts, mis au jour lors de la dernière campagne, présente une fine dépression sagittale au niveau antérieur du rebord marginal de L5, qui tend à disparaître vers la partie postérieure du corps (Fig. 7). Ce pincement des plateaux supérieurs et inférieurs, est situé au milieu du corps vertébral. Une petite crête osseuse, en forme d'éperon, relie les extrémités antérieures de la dépression, à l'instar de ce qui est observé pour le cas n°4. Aucune autre lésion rachidienne n'a été relevé sur ce sujet, induisant une forme mineure et asymptomatique de l'anomalie.

Dépression sagittale avec invagination superficielle à dominance antérieure, cas n°6 : SP 21755 – Cimetière médiéval de Saint Jean de Todon (Laudun, Gard)

Ce cas provient du cimetière associé à la Chapelle médiévale de Saint Jean de Todon (Laudun, Gard). Ce site est situé sur un promontoire entouré de falaises connu comme le « *Camp de César* », en raison de la présence d'une agglomération protohistorique et romaine. Les datations radiocarbones, évoquent une occupation depuis la seconde moitié du IX^e siècle jusqu'au XIV^e siècle, date à laquelle la chapelle sera démantelée. Près de 181 coffrages particulièrement bien conservés ont été découverts ; leur fouille a mis en évidence différents dispositifs de signalisation des sépultures, Parfois monumentalisés et d'architecture complexe, ils laissent présager d'un statut social particulier [34,35]. L'étude anthropologique qui est en cours suggère un NMI de plus de 280 sujets, essentiellement adultes, avec une prédominance masculine.

Dépression sagittale avec invagination superficielle à dominance antérieure, cas n°7 : Sujet 3498 – Collection Oliver Musée de l'Homme (Paris)

Ce cas contemporain (femme de 57 ans) provient de la collection « Oliver », conservée au Musée de l'Homme. Elle

doit son nom à son instigateur, le Pr Georges Olivier, qui l'a constituée durant les années 1960 à partir d'individus ayant fait don de leur corps à la science ou sans sépulture [36,37]. Au total 106 sujets disséqués, identifiés et documentés (âge au décès, sexe, stature) sont régulièrement étudiés.

Les cas n°6 et n°7 de notre corpus illustrent la forme mineure de la lésion isolée et sans complication, présente dans la littérature et observée en pratique clinique (Fig. 1D et Fig. 8). En effet, tous deux témoignent de la forme d'expression de la vertèbre en papillon caractérisée ici par une simple dépression sagittale du rebord marginal de la première vertèbre sacrée (Fig. 9A et B). Au niveau du plateau vertébral, un fin sillon mime un effondrement central du corps, conférant à la vertèbre une image d'entonnoir évasé (Fig. 9C). Ce sillon (comme dans la plupart des cas de notre étude) sépare « virtuellement » et très « partiellement » la vertèbre en deux parties symétrique, puisqu'il peut traverser le corps jusque dans sa partie postérieure (Fig. 9C). Aucune lésion n'est associée sur L5 ni ailleurs sur le rachis. Cette morphologie de la vertèbre en papillon siègeant uniquement

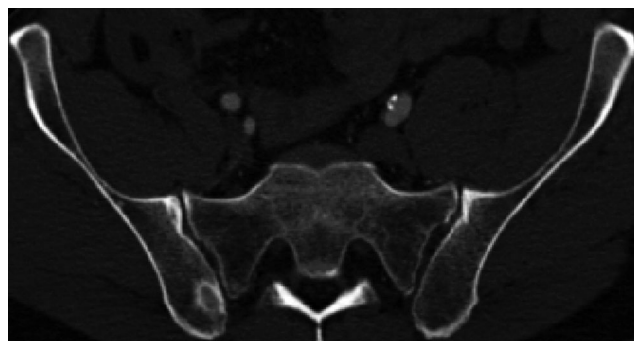


Fig. 8 Coupe tomodensitométrique du bassin (CT Scan) montrant un cas contemporain (homme de 57 ans) d'une vertèbre en papillon de forme mineure et asymptomatique. Source APHM, Hôpital Nord, Marseille / *Hip CT scan of a modern case of minor and asymptomatic "butterfly vertebra" (Adult male, age 57). Source: APHM, Hôpital Nord, Marseille*

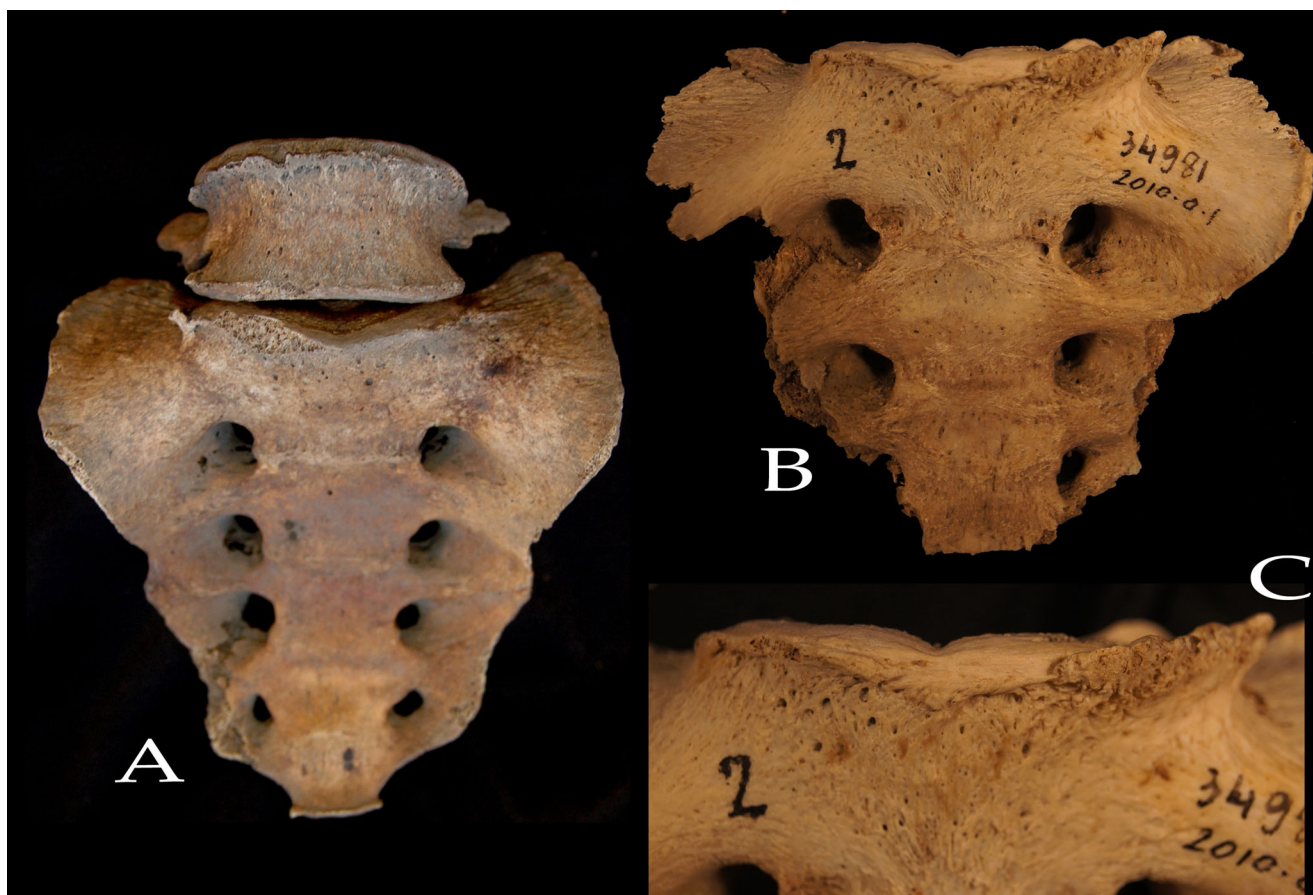


Fig. 9 Vue antérieure du la charnière lombo-sacrée du cas n°6 (A), vue antérieur du sacrum du cas n°7 (B) et vue de détail de S1 du cas n°7 (C) / *(A) anterior view of the lumbosacral spine region, case n°6; (B) anterior view of the sacrum spine, case n°6; (C) detail of S1, case n°7*

sur la première vertèbre sacrée répond à la plupart des critères diagnostics paléopathologiques de la forme isolée, bénigne et asymptomatique déjà décrite plus haut.

Conclusion

En paléopathologie, le rachis est le siège d'un grand nombre d'anomalies congénitales dont l'identification est tributaire de l'état de conservation des pièces osseuses et de l'existence de critères d'identification clairement définis. Toutefois, au vu du recensement sans cesse plus étoffé de cas paléopathologiques de vertèbres en papillon asymptomatiques et rarement associées à des complications biomécaniques (ou à des syndromes), ces deux aspects ne sont plus une entrave au diagnostic. Aussi, il semble judicieux de porter, lors d'examen ostéologiques, une plus grande attention à cette lésion et en particulier à sa forme la plus mineure. Notre étude, à travers la description de nombreux cas inédits, a permis de souligner la grande variabilité de l'expression lésionnelle des vertèbres en papillon. Elle démontre notamment la proportion importante des formes les plus bénignes, qui ne s'expriment que par de très discrètes modifications. Notre étude fournit également deux éléments diagnostics peu présents dans la littérature. Tout d'abord, la présence de néoproduction osseuse en éperon sur la partie antérieure du corps. Dans deux cas (cas n°4 et 5, Fig. 7) celle-ci fait office de pont reliant les deux extrémités de la lésion. En paléopathologie, cette forme de compensation avec production osseuse antérieure n'était alors évoquée que dans un cas sévère [12]. Ensuite, la forme bénigne confirme que vertèbres thoraciques et lombaires ne sont pas une localisation exclusive. Par conséquent, la recherche de vertèbres en papillon isolées, d'expression moindre, siégeant sur la première vertèbre sacrée (dont deux cas sont rapportés ici) modifiera probablement leur perception paléopathologique. À ce propos, l'un de nos cas inédits, daté de la Basse Époque est dans l'état actuel de nos recherches bibliographiques le premier cas paléopathologique identifié en Égypte. De nouveaux calculs de prévalences de la lésion sous toutes ses formes d'expression doivent être également envisagés afin d'approfondir son impact paléoépidémiologique réel. À ce jour les travaux de Merbs et de Barnes [6,16,18] ont montré les fortes prévalences de vertèbres en papillon de certains échantillons ostéoarchéologiques esquimaux. Pour l'expliquer certains auteurs soulignent notamment l'influence des liens d'apparentement exacerbés dans certaines séries provenant de populations très isolées génétiquement [6-16]. Aussi dans l'optique d'identification de relations entre les individus voire de l'étude du recrutement, l'analyse de prévalence des vertèbres en papillon pourrait être pertinente. En effet, cette malformation, outre ces aspects lésionnels, présenterait également un fort potentiel de description ostéo-

biographique, d'autant plus s'il est resitué dans son contexte archéologique.

Remerciements Ce travail est dédié à la mémoire de Michel Baud. Tous nos remerciements à Philippe Blanchard (Inrap), Ludovic Debs (Inrap), Aurélie Fort (Musée de L'Homme Paris), Anne Jégouzo (Inrap), Samuel Longepierre (LA3M, CNRS) et Laurent Vidal (Inrap).

Références

1. Adamsbaum C, Merzoug V, Hamidou A, et al (2001) Malformations congénitales du rachis. EMC Radiodiag- squelette normal-neuro-app locomoteur 31-120-A10:1-10.
2. Chapon F, Pineau S, Jouve JL, et al (2011) Malformations congénitales du rachis. EMC radiol et imagerie medicale-musclosque-neuro-maxillofacial 31-672-C10:1-23.
3. Muller F, O'Rahilly R, Benson R (1986) The early origin of vertebral anomalies, illustrated by a 'butterfly vertebra'. *J Anat* 149:157-69
4. Sonel B, Yalcin P, Ozturk EA, Bokesoy I (2001) Butterfly vertebra: a case report. *Clin Imaging* 25(3):206-8
5. Cho HL, Kim JS, Paeng SS, Lee SH (2011) Butterfly vertebra with lumbar intervertebral disc herniation. *J Neurosurg Spine* 15 (5):567-70
6. Barnes E (1994) Developmental defects of the axial skeleton in paleopathology. 1994, Niwot, University Press of Colorado, 360p
7. Zuo K, Asenjo JF, Colmegna I (2013) Butterfly vertebra. *Arthritis Rheum* 65(1):196
8. Fernandes T Costa C (2007) Klippel-Feil syndrome with other associated anomalies in a medieval Portuguese skeleton (13th-15th century). *J Anat* 211(5):681-5
9. Anderson T (2003) A medieval example of sagittal cleft or 'Butterfly vertebra'. *Int J Osteoarchaeol* 13:352-7
10. Aufderheide AC, Rodriquez-Martin C (1998) The Cambridge encyclopedia of human paleopathology. Cambridge, Cambridge University Press
11. Fischer F, Vandermark R (1943) Sagittal cleft (butterfly) vertebra. *J Bone Jt Surg* 27(4):695-8
12. Brasili P, Bonfiglioli B, Ventrella AR (2002) A case of "butterfly" vertebra from Sardinia. *Int J Osteoarchaeol* 12:415-9
13. Gilder SSB (1954) Carl Von Rokitansky. *Canad. MAJ* 71:71-4
14. Patinharayil G, Han CW, Marthya A, et al (2008) Butterfly vertebra: an uncommon congenital spinal anomaly. *Spine (Phila Pa 1976)* 33(24):E926-8
15. Garcia F, Florez MT, Conejero JA (1993) A butterfly vertebra or a wedge fracture? *Int Orthop* 17(1):7-10
16. Barnes E (2012) Atlas of Developmental Field Anomalies of the Human Skeleton: A Paleopathology Perspective. New York, Wiley-Blackwell, John Wiley & Sons, Inc
17. Krantz ID, Piccoli DA, Spinner NB (1997) Alagille syndrome. *J Med Genet* 34(2):152-7
18. Merbs CF (2004) Sagittal clefting of the body and other vertebral developmental errors in canadian Inuit skeletons. *Am J Phys Anthropol* 123:236-49
19. Molnar E, Marcsik A (2002) Paleopathological evaluation of hungarian skeletal remains from the 7th-9th centuries AD. *Anthropol Portuguesa* 19:85-99
20. Keenleyside A (2012) Sagittal Clefting of the Fifth Lumbar Vertebra of a Young Adult Female from Apollonia Pontica, Bulgaria. *Int J Osteoarchaeol* early view online: DOI:10.1002/oa.2268

21. Pfeiffer S, Katzenberg MA, Kelley MA (1984) Congenital abnormalities in a prehistoric iroquoian village: the Uxbridge osuary. *Canad Rev Phys Anthropol* 4:83–92
22. Debs L (2006) *Lille, Rue des Tanneurs, Rapport de Fouilles Archéologiques*. SRA Nord Pas-de-Calais, Lille
23. Kumar R, Guinto FC Jr, Madewell JE, et al (1988) The vertebral body: radiographic configurations in various congenital and acquired disorders. *Radiographics* 8(3):455–85
24. Jégouzo A, Barbier E, Kacki S (2011) *Le cloître de la basilique Saint-Hilaire : évolution et transformation d'un complexe religieux du IV^e siècle. Rapport Final d'Opération*, SRA Poitou-Charentes
25. Ogilvie JW, Sherman J (1987) Spondylolysis in Scheuermann's disease. *Spine* 12(3):251–3.
26. Merbs CF (1996) Spondylolysis of the sacrum in Alaskan and Canadian Inuit skeletons. *Am J Phys Anthropol* 101(3):357–67
27. Andreu G, Baud M (2010) Fouilles du département des Antiquités égyptiennes à Saqqara (saison 2010). La recherche au Musée du Louvre 2010:109-12
28. Baud M (2010) Les fouilles du département des Antiquités égyptiennes du musée du Louvre à Saqqara, cimetière d'Akhethetep - Saison 2010. *Chronique archéologique des Orientalia* :1-3
29. Hussein FH, Sarry El-Din AM, El Samie Kandeel WA, El Banna RAE-S (2009) Spinal pathological Findings in Ancient Egyptians of the greco-roman period living in Bahiryah Oasis. *Int J Osteoarchaeol* 19:613–27
30. El-Din Sarry AM, El Banna RAE-S (2006) Congenital anomalies of the Vertebral column: a case study on ancient and modern Egypt. *Int J Osteoarchaeol* 16:200–7
31. Longepierre S (2011) *Les meules à grain et les meulières dans le Sud-est de la France du IV^e siècle avant JC au XII^e siècle après JC. Thèse de doctorat d'Archéologie*: Aix-Marseille Université, Université de Provence, mention Lettres et Sciences Humaines. 812 p
32. Blanchard P, Cunault M, Kacki S (2010) Orléans, La Madeleine : hospitalité et recueillement à travers différentes occupations (IX-XVIII^e s.). *Rapport Final d'Opération*, SRA Centre
33. Blanchard P, Kacki S, Rouquet J (2010) L'établissement hospitalier des X-XI^e siècles de la Madeleine à Orléans. Essai de caractérisation des espaces et de la population. In: Le Clech S, editor. *Actes du colloque Espaces, Objets, Populations dans les établissements hospitaliers, du Moyen Age au XX^e siècle* (Tonnerre, 4-5 septembre 2008) p 301-322
34. Ardagna Y, Blanchard D, Pélaquier E, Vidal L (2010) Saint-Jean de Todon alias Saint-Jean de Rousigue (Laudun L'Ardoise, Gard). *Archéologie du Midi Médiéval* 28-2010:161-80
35. Ardagna Y, Vidal L (2012) Rouvrir, réduire, rallonger, reconstituer : fossoyage dans le cimetière médiéval de Saint-Jean de Todon (Laudun L'Ardoise, Gard). In: Guy H, JeanJean A, Richier A, Schmitt A, Sénépart I, and Weydert N, editors, *Marseille*, 13-15 décembre 2010:105-12
36. Bruzek J (2002) A method for visual determination of sex, using the human hip bone. *Am J Phys Anthropol*. 117(2):157–68
37. Guyomarc'h P, Bruzek J (2010) Dimorphisme sexuel du crâne de sujets identifiés (collection Olivier, MNHN, Paris): évaluation par morphométrie géométrique. *Bull Mem Soc Anthropol Paris* 22(3-4):216–29