

# Glandulær odontogen cyste

## En oversigt og præsentation af et tilfælde

Mikal Lyng Olsen, Merete Aaboe, Jesper Reibel,  
Ellen Savery og Erik Hjørting-Hansen

Den glandulære odontogene cyste er en relativt ny-beskrevet kæbecyste. Cysten er sjælden, idet der på verdensplan er rapporteret færre end 50 tilfælde. Imidlertid synes den, som keratocysten, at recidivere hyppigere end andre kæbecyster, hvorfor tandlæger bør være opmærksomme på dens eksistens. I artiklen opgøres den foreliggende litteratur i forbindelse med præsentation af et tilfælde af en recidiverende glandulær odontogen cyste.

Den glandulære odontogene cyste (GOC) blev beskrevet første gang i 1987 (1) og karakteriseret mere detaljeret året efter (2). Cysten blev inkluderet i 1992-udgaven af WHO's klassifikation af odontogene tumorer mv., hvor den klassificeredes som en udviklingsbetinget odontogen epitelial cyste (3) (Tabel 1).

Koppang *et al.* opgjorde i 1998 47 GOC fra litteraturen inklusive egne tilfælde (4). Antallet af beskrevne tilfælde er således beskedent, og cysten betegnes i litteraturen som sjældent forekommende. Det er imidlertid interessant at cysten synes at have en relativt høj recidivtendens, hvorfor kendskab til denne cyste er væsentlig for tandlæger.

Der hersker nogen uenighed mht. cystens navn, idet der foruden betegnelsen glandulær odontogen cyste (2) er anvendt betegnelserne sialo-odontogen cyste (1), mukoe-pidermoid odontogen cyste (5) og polymorf odontogen cyste (6). WHO anvender betegnelsen »glandular odontogenic cyst (sialo-odontogenic cyst)«. Måske burde cysten rettelig benævnes glanduloid eller adenomatoid odontogen cyste, analogt med betegnelsen adenomatoid odontogen tumor.

I artiklen præsenteres et tilfælde af en recidiverende GOC, og den foreliggende litteratur gennemgås.

### Litteraturgennemgang, inkl. eget tilfælde

I opgørelsen er inkluderet tilfældene medtaget af Koppang *et al.* (4) med undtagelse af case 1, 2 og 4 fra Günzl *et al.* (7), som er genrapporteret af Vesper *et al.* (8) med længere observations-tid, de syv tilfælde rapporteret af Wang *et al.* (9), som det

Tabel 1. WHO's klassifikation af epiteliale kæbecyster (3).

Odontogene cyster
Udviklingsbetingede
Gingival cyste
Odontogen keratocyste
Follikulær cyste
Eruptionscyste
Lateral parodontal cyste
Glandulær odontogen cyste (sialo-odontogen cyste)
Botryoid odontogen cyste
Inflammatoriske
Radikulær (periapikal) cyste
Inflammatorisk lateral parodontal cyste
Residualcyste
Non-odontogene
Nasopalatinal cyste
Nasolabial cyste
Midtpalatinal cyste

ikke har været muligt at bedømme vha. tekst og mikrofotos samt de fire tilfælde fra *Hussain et al.* og case 3, 4 og 5 fra *High et al.* (6,10), som vi ikke med sikkerhed kan verificere som GOC i henhold til *Gardner et al.s* samt WHO's kriterier (2,3). Opgørelsen inkluderer således 30 tilfælde fra *Koppang et al.* (4), 17 tilfælde rapporteret siden da (8,11-18) samt eget tilfælde; i alt 48 GOC (Fig. 1,2).

GOC er intraossøs, forekommer ligeligt fordelt mellem kønnene, og de fleste tilfælde optræder i 40-60-års-alderen (Fig. 1). Cysten forekommer i maksillen, men dog langt hyppigere i mandiblen (Fig. 2). Lokalisationen er primært anterior i kæberne (Fig. 2).

Hævelse er ofte det eneste symptom, men hævelsen kan også være kombineret med ømhed og smerte (Tabel 2). Cysten kan ekspandere betydeligt, og bilateral involvering af mandiblen er beskrevet (10). Et asymptomatisk forløb ses i ca. en tredjedel af tilfældene (Tabel 2). Rodresorptioner (19) og placering af tænder (12) er meget sjældent forekommende. Cysten er ikke specielt relateret til tænder med avital pulpa.

Radiologisk manifesterer cysten sig som en veldefineret radiolucens, der kan være uni- eller multilokulær. Den observeres oftest i tændernes apikale område, men kan også ekstendere til de interdental regioner. De radiologiske forandringer, med tydelig kortikal afgrænsning, er karakteristiske for en cyste og tillader derfor ikke at der stilles nogen endelig diagnose, hvorfor histologisk undersøgelse af en

vævsprøve fra forandringen er nødvendig for at stille diagnosen GOC.

### Histologi

*Gardner et al.* (2) anførte kriterier for diagnostik af GOC. Cysten er principielt beklædt med uforhornet pladeepitel af varierende tykkelse, men de superficielle epitellag udgøres af kubiske celler med eosinofilt cytoplasma, til tider med papillære ekskrescencer. Der forekommer små ansamlinger af mucin i epitelet, der ofte er omgivet af kubiske celler, identiske med de epitelceller der beklæder overfladen. Egentlige bægerceller forekommer også. I cysteepitelet kan ses fokale fortykkelser, såkaldte epiteliale plaques, som også kan ses i laterale parodontale cyster og gingivale cyster hos voksne samt i botryoide odontogene cyster. Der ses sædvanligvis ingen inflammation i bindevævs kapslen, hvor der i nogle tilfælde kan ses uregelmæssige forkalkninger.

Det histologiske billede er således karakteristisk, og i modsætning til hvad der er tilfældet for mange andre kæbecyster, hvor en kombination af klinik og histologi er bestemmende for diagnosen, er det hvad GOC angår alene muligt at stille diagnosen på et histologisk grundlag. Dette er også tilfældet for keratocysten.

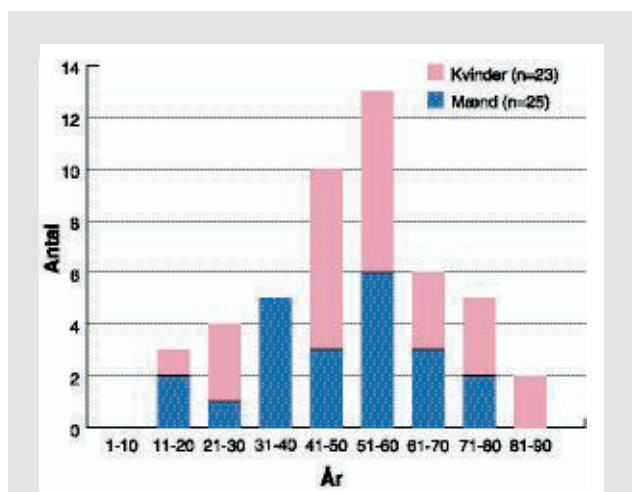


Fig. 1. Køns- og aldersfordeling for 48 patienter med glandulære odontogene cyster beskrevet i litteraturen (inklusive eget tilfælde).

Fig. 1. Gender and age distribution of 48 patients with glandular odontogenic cysts described in the literature (own case included).

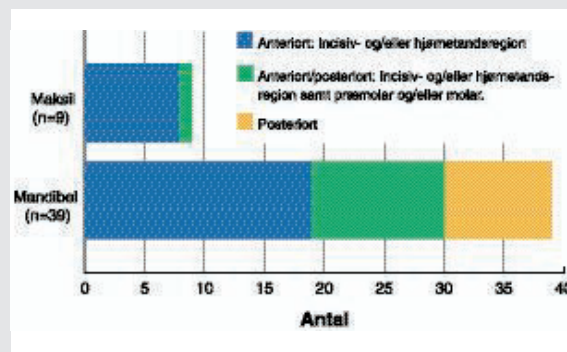


Fig. 2. Fordeling af 48 glandulære odontogene cyster beskrevet i litteraturen (inkl. eget tilfælde). Anterior: Cyster beliggende i incisiv- og/eller hjørnetandsregionen. Posterior: Cyster beliggende i præmolar- og/eller molarregionen. Anterior/posterior: Cyster beliggende i incisiv- og /eller hjørnetandsregionen samt præmolar- og/eller molarregionen.

Fig. 2. Distribution of 48 glandular odontogenic cysts described in the literature (own case included). Anteriorly: Cysts confined to the incisor and/or canine region. Posteriorly: Cysts confined to the premolar and/or molar region. Anteriorly/posteriorly: Cysts confined to the incisor and/or canine region as well as in the premolar- and/or molar region.

Tabel 2. Fordeling af symptomer (kliniske og radiologiske) hos 48 patienter med glandulær odontogen cyste beskrevet i litteraturen (inkl. eget tilfælde).

Fordelingen af kliniske symptomer hos 44 patienter, inkl. eget tilfælde (oplysninger mangler for fire patienter)

Ingen	13
Alene hævelse	21
Hævelse samt ømhed/smerte	8
Ømhed/smerte	1
Displacering af tænder	1

Fordelingen af radiologiske fund hos 45 patienter, inkl. eget tilfælde (oplysninger mangler for tre patienter)

Radiolucens (uden nærmere beskrivelse)	8
Unilokulær radiolucens	14
Multilokulær radiolucens	20
Radiolucens med guirlandeformet afgrænsning	3

## Behandling og prognose

Langt de fleste af de rapporterede GOC er behandlet ved enukleering, ekscision, curettage eller eksstirpation. De få cyster der er fjernet radikalt (*en bloc*-resektion, mandibulektomi/maksillektomi), har på grundlag af biopsi været under mistanke for mukoepidermoidt karcinom.

Tretten, dvs. en tredjedel af de rapporterede GOC, er recidiveret inden for fire år efter initial behandling, de fleste (halvdelen) efter 2-3 år. Denne recidivtendens må betegnes

som høj, især i betragtning af at den gennemsnitlige observationstid for samtlige rapporterede cyster kun er 3½ år (variation 0-20 år). Længere observationstider må således formodes at vise endnu større recidivtendens. To af de rapporterede GOC recidiverede to gange (andet recidiv ikke medregnet i de 13 primære recidiver); sidste recidiv sås 4-5 år efter initial behandling.

Ved en histologisk konstatering af tilstedeværelse af en GOC bør man, som det gælder for keratocysten, den vigtigste differentialdiagnose, kontrollere med regelmæssige mellemrum i mindst fem år efter initial behandling.

## Eget tilfælde

Patienten var en 67-årig kvinde, der i september 1996 henvendte sig på Tandlægeskolen i København mhp. fremstilling af en ny partiel protese i overkæben. I forbindelse med behandlingsplanlægningen observeredes på intraorale optagelser en 1,0 x 1,0 cm velafgrænset, unilokulær radiolucens sv. t. til den apikale del af ±1,2,3 (Fig. 3A), som resulterede i en henvisning til Afdeling for Tand-, Mund-, og Kæbekirurgi mhp. udredning af tilstanden. I anamnesen fandtes ingen almene lidelser, ud over helårs-rhinitis, som blev behandlet ved daglig indtagelse af antihistamin (Semprex®). Der havde ikke tidligere været observeret mund- eller slimhindelidelser eller sygdomme i kæberne. Resttandsættet var velholdt og velbehandlet uden patologiske pocher. Der var sunde forhold sv.t. slimhinder og gingiva. Patienten havde på intet

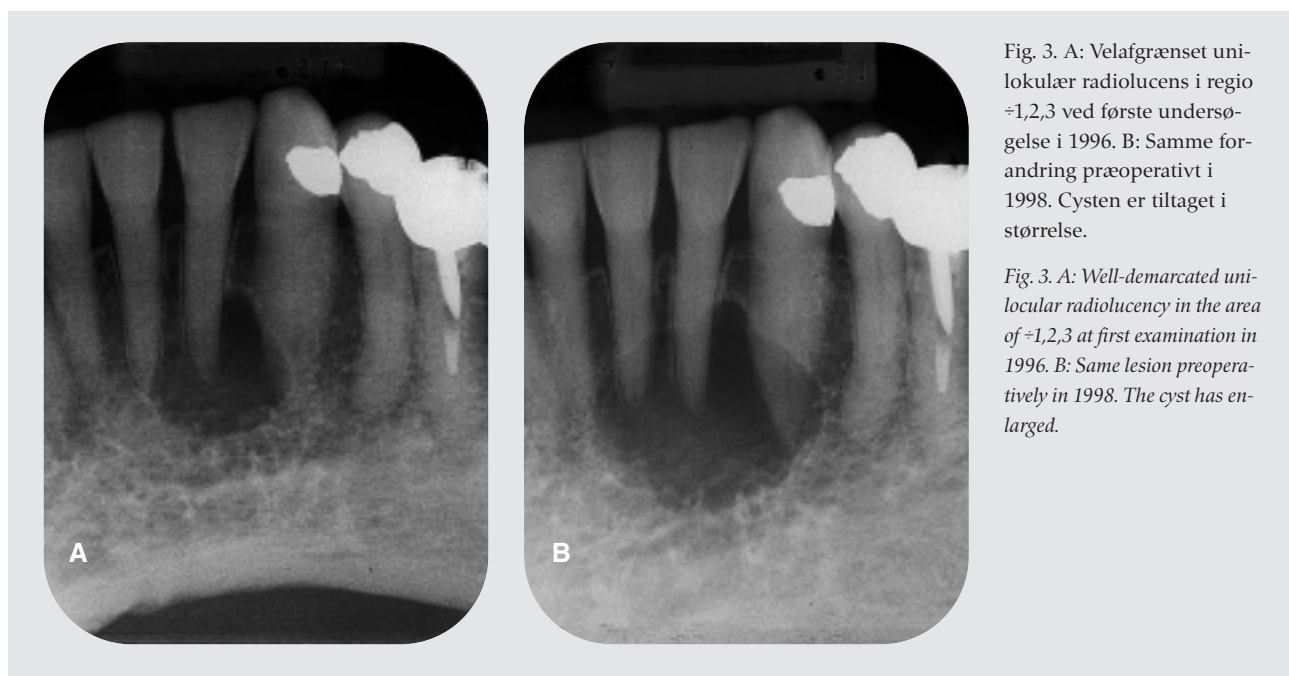


Fig. 3. A: Velafgrænset unilokulær radiolucens i regio ±1,2,3 ved første undersøgelse i 1996. B: Samme forandring præoperativt i 1998. Cysten er tiltaget i størrelse.

Fig. 3. A: Well-demarcated unilocular radiolucency in the area of ±1,2,3 at first examination in 1996. B: Same lesion preoperatively in 1998. The cyst has enlarged.

tidspunkt registreret symptomer fra den aktuelle region, og alle inciserer samt hjørnetænder var elektrometrisk målt pulpavitale.

Efter en observationsperiode på to år foretoges i januar 1998 cystektomi i lokalanalgesi, idet cysten nu var 1,6 x 1,4 cm og dermed tiltaget i størrelse (Fig. 3B). Alle inciserer samt hjørnetænder reagerede stadig vitalt. Ved operationen blev der lagt randincision lingvalt fra regio 2÷ til ÷4. Efter rougnering kunne der konstateres gennembrud af knogle i næsten hele cystens udstrækning. Cystelumen indeholdt ingen væske, og kaviteten var velafgrænset.

#### *Histologisk undersøgelse og diagnose*

Præparatet bestod af et ovalt vævsstykke med et sammenklappet cystelumen, beklædt med epitel (Fig. 4). Epitelet var opbygget som pladeepitel med kubiske og cylindriske superficielle celler, stedvis med mucinproduktion. Der sås flere lokale fortykkelser (epitelielle plaques), og i epitelet endvidere mange små luminae, der flere steder var omgivet af kubiske celler (Fig. 4) Under epitelet observeredes en ret fibrøs bindevævs-kapsel med en meget ringe kronisk inflammation. Ingen tegn på malignitet.

På baggrund af den histologiske undersøgelse stilledes diagnosen glandulær odontogen cyste.

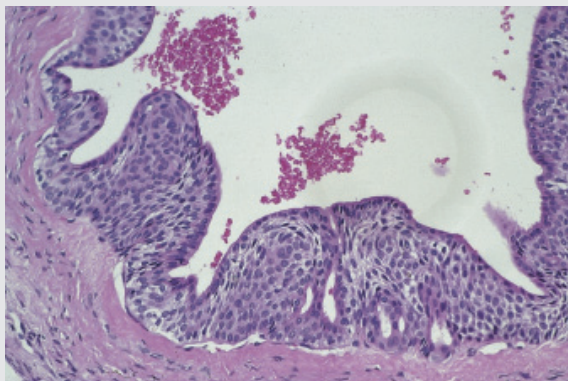


Fig. 4. Mikrofoto af operationspræparatet fra 1998 (HE-farvning). Bemærk fokale fortykkelser af epitelbeklædningen, de kubiske/cylindriske epitelceller på epitelets overflade samt flere små luminae i epitelet, omgivet af kubiske celler. Bindevævs-kapslen består af modent kollagent bindevæv uden inflammation.

Fig. 4. Microphoto of the operation specimen from 1998 (HE-staining). Note the focal thickenings of the epithelial lining, cuboidal/cylindrical cells at the epithelial surface, and small luminae in the epithelium lined by cuboidal cells.

#### *Efterundersøgelse*

Patienten kontrolleredes årligt. Tre år efter behandlingen konstateredes recidiv. I den aktuelle region kunne en ekspansion af den linguale kortikallamel konstateres som det eneste objektive fund (Fig. 5). Den radiologiske undersøgelse afslørede en velafgrænset unilokulær radiolucent læsion, på 0,8 x 0,6 cm (Fig. 6A), som involverede ÷1,2,3. Læsionen medinddrog den apikale tredjedel af ÷1 og ÷2 samt delvis den mesiale rodoverflade af ÷3. Let marginal knogleresorption sås i regio 1÷1,2.

I lokalanalgesi blev et prominere og meget tyndt lingvalt knogleparti apikalt i regio ÷1,2 fjernet. Cystemembranen blev ekskokleeret og fjernet i to dele. Postoperativ kontrol blev løbende foretaget (Fig. 6B). Kontrolforløbet er endnu ikke afsluttet.

Histologisk undersøgelse af det fjernede væv viste cystevæv som det tidligere beskrevne. Diagnosen blev således GOC.

#### **Diskussion**

Det præsenterede patienttilfælde opfylder de histologiske kriterier for GOC som er angivet af Gardner *et al.* (2) og WHO (3).

Det histologiske billede er tilstrækkeligt typisk til opretholdelse af en selvstændig enhed. Det er vigtigt at understrege at forekomsten af bægerceller ikke i sig selv fører til diagnosen GOC, idet sådanne kan forekomme, endog i rigeligt antal, i flere andre odontogene cyster. Differentialdiagnostisk kan mukoepermoidt karcinom komme på tale, især i til-

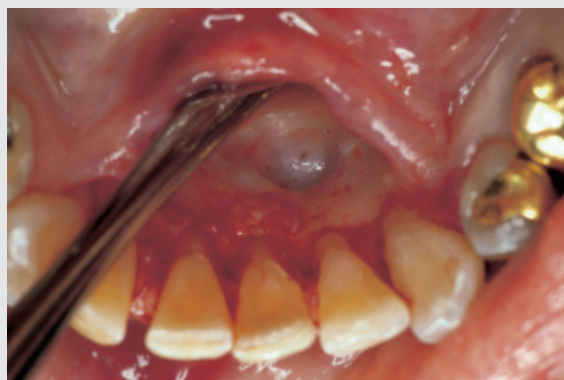


Fig. 5. Linguale slimhinde regio 3÷3 er frirougneret. Bemærk ekspansionen af den linguale kortikale knoglelamel samt den blålige nuance af læsionen.

Fig. 5. Lingual mucous membrane regio 3÷3 is raised. Note the expansion of the lingual cortical bone and the bluish appearance of the lesion.

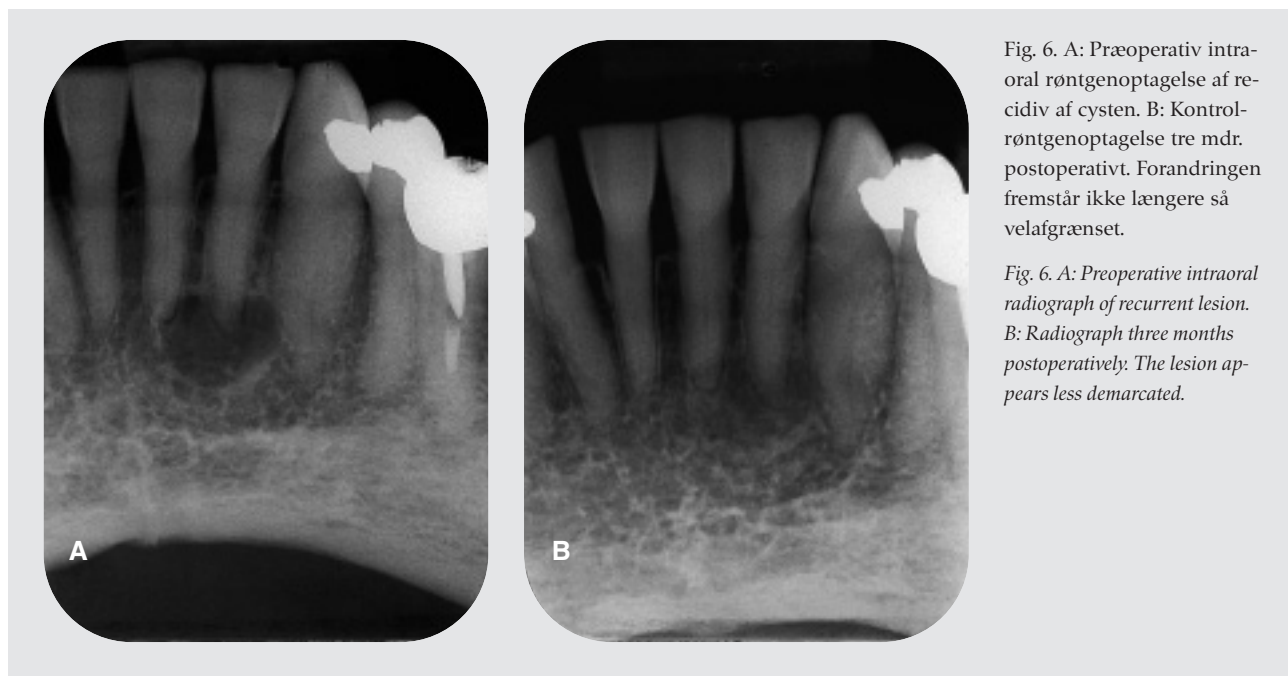


Fig. 6. A: Præoperativ intraoral røntgenoptagelse af recidiv af cysten. B: Kontrolrøntgenoptagelse tre mdr. postoperativt. Forandringen fremstår ikke længere så velafgrænset.

Fig. 6. A: Preoperative intraoral radiograph of recurrent lesion. B: Radiograph three months postoperatively. The lesion appears less demarcated.

fælde hvor cysten vokser i botryoidt mønster eller indeholder mikrocyster i bindevævs kapslen (1,5,19-22). Der er dog ingen malignitetstræk til stede i epitelcellerne i GOC.

Ætiologien er ukendt. Der er imidlertid enighed om en odontogen oprindelse, men hvorvidt den udgår fra rester af lamina dentalis, Malassez'ske epitelrester eller det reducerede emaljepitel er ikke klart. Forekomsten af epitheliale plaques, i lighed med hvad der ses i bl.a. laterale parodontale cyster, kunne antyde et fælles udspring, men det er interessant at mens laterale parodontale cyster sjældent recidiverer, synes GOC at have en høj recidivtendens. Biologisk er der således ringe lighed mellem de to cyster.

Kliniske/radiologiske differentialdiagnoser til GOC er især keratocyste og lateral parodontal cyste samt kæbetumorer med uni- eller multilokulær manifestation som fx ameloblastom. GOC's hyppige lokalisation i frontregionerne er dog ikke de typiske lokalisationer for de ovennævnte cyster og tumorer.

Behandlingen af GOC har bestået i lokal ekskokleation af det patologiske væv samt i få tilfælde af partiel eller total mandibelresektion; sidstnævnte primært pga. mistanke om malign tumor. Elimination af læsionen bør være så effektiv at risikoen for senere recidiv minimeres. Selvom *en bloc* eller marginal resektion er foreslået som en mere sikker procedure til hindring af recidiv, er grundig enukleering og curettage blevet fremhævet som det foretrukne behandlingsvalg, når dette kombineres med et tæt og længerevarende postoperativt kontrolforløb.

Det præsenterede tilfælde vil blive fulgt tæt mindst fem år frem i tiden.

Tak til lektor, ph.d. Søren Schou, Afdeling for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet, for udførelse af det operative indgreb nr. 2.

#### English summary

**Glandular odontogenic cyst.** A case report and review of the literature  
Glandular odontogenic cyst (GOC) is a rare odontogenic cyst, first reported in 1987 and described in more detail in 1988. It was included in the 1992 WHO classification of odontogenic tumors etc.

A case of a 67-year-old woman with a GOC is presented. The cyst was located at the apical part of the roots of 31, 32, and 33 presenting as a well-demarcated unilocular radiolucency. There was no symptoms, no swelling in the area, and the pulps of the teeth in the area were vital. Two years after initial examination the cyst had enlarged and was enucleated. The histology was typical of GOC. Three years after initial surgery the cyst had recurred. No symptoms were recorded. The cyst was surgically removed and it was again histopathologically diagnosed as GOC. Healing was uneventful and follow-up three months after surgery revealed bone healing in the area.

## Litteratur

1. Padayachee A, Van Wyk CW. Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumor: Sialo-odontogenic cyst? *J Oral Pathol* 1987; 16: 499-504.
2. Gardner DG, Kessler HP, Morency R, Schaffner DL. The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 1988; 17: 359-66.
3. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumors*. 2nd ed. Berlin: Springer; 1992.
4. Koppang HS, Johannessen S, Haugen LK, Haanæs HR, Solheim T, Donath K. Glandular odontogenic cyst (sialo-odontogenic cyst): Report of two cases and literature review of 45 previously reported cases. *J Oral Pathol Med* 1998; 27: 455-62.
5. Sadeghi EM, Weldon LL, Kwon PH, Sampson E. Mucoepidermoid odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1991; 20: 142-3.
6. High AS, Main DMG, Khoo SP, Pedlar J, Hume WJ. The polymorphous odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med* 1996; 25: 25-31.
7. Günzl H-J, Horn H, Vesper M, Hellner D. Diagnose und Differentialdiagnose der sialodontogenen (glandulär-odontogenen) Zyste. *Pathologie* 1993; 14: 346-50.
8. Vesper M, Günzl H-J, Hellner D, Schmelzle R. Die sialo-odontogene (glandulär-odontogene) Zyste. *Dtsch Z Mund Kiefer GesichtsChir* 1994; 18: 254-6.
9. Wang SZ, Chen XM, Li Y. Clinicopathological analysis of glandular odontogenic cyst. In Chinese, abstr. in English. *Chung Hua Kou Chiang Hseuh Tsa Chih (Chin J Stomatol)* 1994; 29: 329-31.
10. Hussain K, Edmondson HD, Browne RM. Glandular odontogenic cyst: Diagnosis and treatment. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1995; 79: 593-602.
11. Savage NW, Joseph BK, Monsour PA, Young WG. The glandular odontogenic jaw cyst: report of a case. *Pathology* 1996; 28: 370-2.
12. Magnusson B, Göransson L, Ödesjö B, Gröndahl K, Hirsch JM. Glandular odontogenic cyst. *Dentomaxillofac Radiol* 1997; 26: 26-31.
13. Ramer M, Montazem A, Lane SL, Lumerman H. Glandular odontogenic cyst: report of a case and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 84: 54-7.
14. de Sousa SOM, Cabezas NT, de Oliveira PT, de Araújo VC. Glandular odontogenic cyst: Report of a case with cytokeratin expression. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 83: 478-83.
15. Binda JE, Kuepper R, Pulse C. Glandular odontogenic cyst: a case report and review of the literature. *Col Dent Rev* 1997; 2: 1-5.
16. Lin C-C, Chen C-H, Lai S, Chen Y-K, Wan W-C, Lu S-Y, et al. Glandular odontogenic cyst: a case report. *Kaohsiung J Med Sci* 2000; 16: 53-8.
17. Damm DD, Fantasia JE. Anterior mandibular radiolucency. Glandular odontogenic cyst. *Gen Dent* 2000; 48: 30, 107.
18. Barreto DC, Marco L, Castro WH, Gomez RS. Glandular odontogenic cyst: absence of PTCHgene mutation. *J Oral Pathol Med* 2001; 30: 125-8.

19. Patron M, Colmenero C, Larrauri J. Glandular odontogenic cyst: Clinico-pathologic analysis of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72: 71-4.
20. Ficarra G, Chou L, Panzoni E. Glandular odontogenic cyst (sialo-odontogenic cyst). *Int J Oral Maxillofac Surg* 1990; 19: 331-3.
21. Tōida M, Nakashima E, Okumura Y, Tatematsu N. Glandular odontogenic cyst: A case report and literature review. *J Oral Maxillofac Surg* 1994; 52: 1312-6.
22. Waldron CA, Koh MI. Central mucoepidermoid carcinoma of the jaws. Report of four cases with analysis of the literature and discussion of the relationship to mucoepidermoid, sialo-odontogenic, and glandular odontogenic cysts. *J Oral Maxillofac Surg* 1990; 48: 871-7.

## Forfattere

Mikal Lyng Olsen<sup>1</sup>, scholarstipendiat, stud.odont., Merete Aaboe<sup>2</sup>, specialtandlæge, ph.d., Jesper Reibel<sup>3</sup>, professor, dr.odont., Ellen Savery<sup>4</sup>, tandlæge, lic.odont., og Erik Hjørtting-Hansen<sup>5</sup>, professor, dr.odont.

Afdelingerne for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi<sup>1,2,4,5</sup>, og for Oral Patologi & Medicin<sup>3</sup>, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet, og Rigshospitalets Klinik for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi<sup>2,5</sup>.