

Florid cemento-ossøs dysplasi

En oversigt og præsentation af et radiologisk diagnosticeret tilfælde

Ib Sewerin

Florid cemento-ossøs dysplasi er en sjælden lidelse. Den optræder overvejende hos negrider og asiater, og der er kun beskrevet få tilfælde hos hvide. Den giver kun i ca. halvdelen af tilfældene symptomer, og oftest i de senere stadier. En del af de tidligere publicerede tilfælde er diagnosticeret ved røntgenundersøgelse i anden anledning.

I artiklen præsenteres en 49-årig hvid, dansk kvinde med bilaterale forandringer i underkæben der radiologisk blev diagnosticeret som florid cemento-ossøs dysplasi. Patienten havde ikke symptomer der med sikkerhed kunne henføres til dysplasien, og der fandtes derfor ikke basis for at udføre knoglebiopsi. Tilstanden blev diagnosticeret som et tilfældigt fund på Tandlægeskolen, Københavns Universitet.

Florid cemento-ossøs dysplasi (FCOD) defineres i WHO's klassifikation af odontogene tumorer (1) som »lobulerede masser af tæt, højt mineraliseret, næsten acellulært, cemento-ossøst væv, der typisk optræder i flere områder af kæberne«. Lidelsen er klassificeret som en ikke-neoplastisk knogleforandring tilhørende gruppen af cemento-ossøse dysplasier.

Terminologi

Betegnelsen florid ossøs dysplasi blev introduceret af *Melrose et al.* i 1976 (2) og senere udvidet til florid cemento-ossøs dysplasi. I WHO's klassifikation (1) anvendes betegnelserne gigantiformt cementom og familiære multiple cementomer som parentetiske synonymymer for FCOD.

Både før og efter *Melrose et al.s* introduktion af diagnosen er publiceret en række beslægtede tilfælde under navne som *multiple enostoses, sclerotic cemental masses of the jaws, familial multiple cementomas, sclerosing osteomyelitis, sclerosing osteitis* og *autosomal dominant cemental dysplasia*.

FCOD anses for forskellig fra periapikal cementdysplasi som oftest er lokaliseret til underkæbens incisivregion alene, og som oftest omfatter læsioner på højst 10 mm i diameter. De to tilstande betragtes dog som beslægtede, og visse forfattere anser FCOD for en ekstensiv form for periapikal cementdysplasi med udvidet (generel) udbredelse i kæberne (3, 4).

Forekomst

Forandringerne er lokaliseret til de tandbærende dele af kæberne og træffes hos den betandede patient altid i relation til tændernes apices.

Lidelsen er karakteriseret ved langt overvejende at forekomme hos negrider og asiater (Tabel 1). Der er publiceret enkelte tilfælde hos hvide (11, 12), herunder ét tilfælde i Finland hos en 39-årig kvinde (13).

Lidelsen er ligeledes karakteriseret ved overvejende at optræde hos kvinder, og den diagnosticeres hyppigst hos midaldrende (Tabel 1).

Forandringerne optræder typisk i flere kvadranter samtidigt, og i visse tilfælde er alle fire kvadranter involveret. Forandringerne er dog hyppigst i underkæben, og i en lang række tilfælde ses alene underkæben inddraget.

Ætiologi

Lidelsens ætiologi er ukendt, men visse observationer tyder på et arveligt moment. *Sedano et al.* (14) beskrev således et tilfælde hos en 49-årig kvinde af en tilstand med store lighedspunkter med FCOD, som de imidlertid betragtede som en selvstændig enhed og benævnte autosomal dominant central dysplasi. De fandt 10 familiemedlemmer med ens forandrin-

Tabel 1. Sammendrag af fund i tidligere undersøgelser af patienter med florid cemento-ossøs dysplasi (gigantiforme cementomer).

Forfatter	Antal	Patienter		Aldersvariation i år
		Race	Køn	
Waldron et al. (3)	38	25 negrider 10 hvide 3 ukendt	35 F 3 M	24-83
Melrose et al. (2)	34	32 negrider 1 orientaler 1 ukendt	33 F 1 M	26-59
Tanaka et al. (5)	3	3 japanere	3 F	34-65
Higuchi et al. (6)	4	4 japanere	4 F	31-49
Fun-chee Jinn-fei (7)	9	8 kinesere 1 inder	9 F	37-59
Thompson Altini (8)	28	23 negrider 1 inder 4 hvide	27 F 1 M	17-74
Ariji et al. (9)	7	7 japanere	6 F 1 M	43-65
MacDonald- Jankowski (10)	23	23 kinesere	23 F	37-83

ger. Cannon et al. (12) beskrev et tilfælde af gigantiformt cementom hos en mor og hendes søn.

De apikale forandringer menes at udgå fra parodontalligamentet, men CT-skanning har vist at der ikke i alle tilfælde kan påvises kontakt mellem de radiopake masser og tandroden (9).

Der er ikke rapporteret om systemiske forandringer, unormale laboratorieprøver eller radiologiske forandringer andre steder i kraniet eller knoglesystemet hos patienter med FCOD (2, 7, 11, 13-15).

Symptomatologi

Kliniske symptomer – I svære tilfælde medfører lidelsen fortykkelser af processus alveolaris ud for de dysplastiske områder. I ca. halvdelen af tilfældene rapporteres om ukarakteristiske smerter. Et stort antal tilfælde afsløres imidlertid

kun som tilfældige fund ved røntgenundersøgelse udført i anden anledning. Hos en del patienter er rapporteret om osteomyelitis med deraf følgende symptomer ved blotlægning af skleroseringerne, typisk efter protesebelastning.

Radiologiske forandringer – De afficerede områder kan undergå en udvikling og kan i tidlige stadier ses som radiolucente forandringer. Senere i forløbet udfyldes de gradvist med hårdtvæv og antager et blandet radiolucent/radiopakt udseende. De slutter som massive, sklerotiske forandringer. I nogle tilfælde viser de mere skarpt afgrænsede radiolucente forandringer sig at være cystiske hulrum, der formentlig svarer til simple knoglecyster (2, 16).

Histologiske forandringer – I de tidlige stadier ses et fibroblastisk stroma med relativt små mængder knogle- og cementlignende hårdtvæv. Mængden af knogle- og cementlignende hårdtvæv tiltager for til sidst at dominere billedet som store, solide hårdtvævsmasser. En sontring mellem patologisk knogle og cement er ofte vanskelig, men hyppigst domineres billedet af cementlignende hårdtvæv, omend der i nogle tilfælde er fundet knoglevæv alene (3). Der ses ofte relativt få osteocyt-lakuner i hårdtvævet, og i tilfælde med komplikationer i form af osteomyelitis ses sekvestrering og resorption af hårdtvævet.

Hvis egentlige cystiske forandringer forekommer, drejer det sig om non-epiteliale cyster afgrænset af fibrøst bindevæv (2, 12, 16), hvilket er det samme billede som ses ved simple knoglecyster.

Udvikling, komplikationer

Tilstanden udvikler sig langsomt over en årrække (2, 6). Den udbredes formentligt successivt til flere kvadranter, idet udbredelse til alle fire kvadranter ses hyppigst hos ældre individer (10).

I en del tilfælde er rapporteret om komplikationer i form af osteomyelitis og sekvestreringer (2, 15, 17). Disse komplikationer optræder især hvis patienten bliver tandløs, og de cemento-ossøse forandringer eksponeres. Der er tillige rapporteret et tilfælde (18) hvor endodontisk behandling af en afficeret tand hos en FCOD-patient udløste en osteomyelitislignende tilstand.

Differentialdiagnostik

Radiologisk kan FCOD have lighedspunkter med kæbeforandringerne ved familiær adenomatøs polypose (19), men FCOD er ikke ledsaget af andre symptomer. Det samme gælder differentialdiagnostik over for Pagets sygdom, som udbredes polyostotisk og medfører ændrede laborativærdier.

Radiologisk kan FCOD yderligere delvis ligne skleroserer-

de osteomyelitis; tilstedeværelse af cystiske opklaringer udelukker imidlertid denne diagnose.

FCOD kan også forveksles med tumorer, først og fremmest det cemento-ossificerende fibrom; dette er imidlertid radiologisk karakteriseret ved en tydelig kapsel og forekommer typisk som en solitær forandring. FCOD kan endvidere have lighedspunkter med det benigne cementoblastom, som imidlertid overvejende ses på præmolarer og molarer i underkæben, er afgrænset af en kapsel, medfører resorption af roden og ikke viser nogen forudgående fibrøs destruktion.

Patienttilfælde

Patienten var en 49-årig kvinde som fik foretaget almindelig tandbehandling på Tandlægeskolen, Københavns Universitet. I forbindelse med rodbehandling af ÷6 observeredes nogle sklerotiske områder apikalt, som udløste en videregående røntgenundersøgelse.

Anamnese – Ingen oplysninger om almene lidelser. Patienter er behandlet gennem ca. ét år på Tandlægeskolen, Københavns Universitet, bl.a. for smerter, der indtil videre har kunnet henføres til konkrete tanddiagnoser. Nu ømhed for tygning af ÷6 efter nylig rodfyldning.

Objektiv klinisk undersøgelse – *Ekstraoralt:* Normalt ydre. Ingen negroide eller asiatiske træk. *Intraoralt:* Tandsættet velbehandlet. Ved palpation af processus alveolaris konstateredes knoglehårde intumescenser ud for rødderne af 5+5. Ingen volumenforandringer i underkæben. ÷6 (nyligt rodfyldt) kraftigt perkussionsømt. Pochedybder op til 7 mm.

Røntgenundersøgelse

Panoramaundersøgelse – En panoramaoptagelse (Fig. 1) viste et cysteagtigt radiolucent område apikalt for 3÷; tanden fremstod intakt. Diameteren var ca. 9 mm. Desuden sås i begge sider af mandiblen en række velafgrænsede radiopake områder. Diameteren varierede mellem ca. 3 og 13 mm. (De anførte mål er korrigeret for projektiionsbetinget forstørrelse). Der sås desuden sklerotiske områder apikalt for 8, 6÷5, 6, 7 samt et større område i den tandløse regio 7÷.

Intraoral status – Foruden den cystiske opklaring apikalt for 3÷ viste de intraorale optagelser en mindre, delvis hårdtvævsudfyldt radiolucens apikalt for 1÷1 (Fig. 2). De sklerotiske partier, som observeredes på panoramaoptagelsen, genfandt alle. De fremstod dels velafgrænsede, dels mere diffust afgrænsede. De var alle forbundet med apices af tænderne (Fig. 3). Området apikalt for ÷6 dannede en undtagelse, idet det samlede sklerotiske område her sås delt af radiolucente strøg; der sås desuden en opklaring som strakte sig interradikulært næsten til den subpulpale væg. Af de nævnte tænder fremstod visse radiologisk intakte, men andre havde mindre fyldninger. Rodfyldte tænder: 7+ og ÷6. På 5+5 sås hypercementose.

Diskussion

Diagnosen florid cemento-ossøs dysplasi er i det foreliggende tilfælde udelukkende stillet på grundlag af de radiologiske fund, og der foreligger ikke biopsi. Røntgenforandringerne er imidlertid så karakteristiske at diagnosen må anses for overvejende sandsynlig.



Fig. 1. Panoramaoptagelse visende multiple radiopake forandringer i underkæben samt cystisk opklaring apikalt for 3÷. Ingen tilsvarende forandringer i overkæben.

Fig. 1. Panoramic radiograph showing multiple radiopaque lesions in the mandible and a cystic radiolucency apical to 3÷. No similar lesions in the maxilla.

Tilfældet er typisk derved at det optræder hos en midaldrende kvinde og at forandringerne hovedsagelig er lokaliseret til underkæben. Tilfældet er imidlertid særdeles atypisk ved at patienten er hvid.

Det er indtil videre uklart om patientens smerter gennem det sidste år stammer fra de dysplastiske forandringer eller har lokale odontologiske årsager. Indtil videre vil patienten blive observeret med periodisk røntgenkontrol.

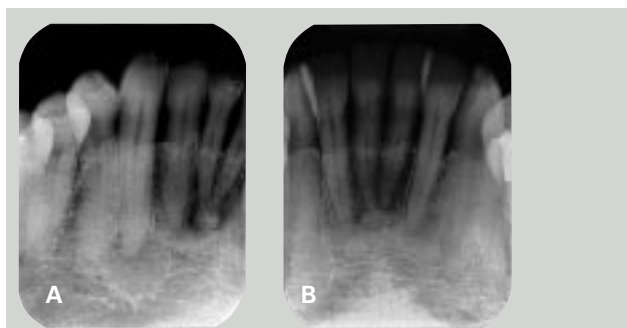


Fig. 2. Intraorale optagelser visende radiolucente områder. A: Cystelignende radiolucent område apikalt for 3÷. B: Mindre, delvis hårdtvævsudfyldt opklaring apikalt for 1÷1.

Fig. 2. Intraoral radiographs showing radiolucent lesions. A: Cyst-like lesion apical to 3÷. B: Minor radiolucency apical to 1÷1, partly filled with mineralised tissue.



Fig. 3. Intraorale optagelser visende radiopaque områder. A: Regio 8,7÷ visende den største af forandringerne. B og C: ÷6 i to projektioner visende at de sklerotiske områder ikke er komplekse, men sammensat af slyngede strøg af hårdtvæv.



Fig. 3. Intraoral radiographs showing radiopaque lesions. A: Regio 8,7÷ showing the biggest lesion. B and C: ÷6 in two views showing that the sclerotic lesion is not complex, but composed of winding zones of mineralised tissue.



Ved tandbehandling af patienter med FCOD kan flere hensyn være påkrævede. Som rapporteret af *Schneider et al.* (18) kan endodontisk behandling initiere akut osteomyelitis i det afficerede apikale parodontium, og antibiotisk dække er anbefalet ved endodontiske indgreb (17, 18).

Da de fleste komplikationer er set i relation til blotlæggelse af de sklerotiske områder, fx ved ekstraktion, eller ved fremadskridende atrofi af en tandløs processus alveolaris, er det af særlig betydning at bevare tænderne hos FCOD-patienter (17).

English summary

Florid cemento-osseous dysplasia. A survey and a radiographically diagnosed case report

Florid cemento-osseous dysplasia is a rare jaw lesion, most often seen in Negroes and Orientals. A case appearing in a 49-year-old Caucasian, Danish female patient is presented. Bilaterally in the mandible several sclerotic areas, measuring up to 13 mm and fused to the apices of the teeth, were observed. One solitary mass was observed in an edentulous area. Two cyst-like radiolucent lesions, also typical of the disease, were found as well. There was no expansion of the jaws and the patient had no symptoms. Biopsy was not performed and the radiographic diagnosis was not histologically verified.

Litteratur

1. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. Histological typing of odontogenic tumours. 2nd ed. WHO International Histological Classification of Tumours. Berlin: Springer; 1992.
2. Melrose RJ, Abrams AM, Mills BG. Florid osseous dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976; 41: 62-82.
3. Waldron CA, Giansanti JS, Browand BC. Sclerotic cemental masses of the jaws (so-called chronic sclerosing osteomyelitis, sclerosing osteitis, multiple enostosis, and gigantiform cementoma). *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975; 39: 590-604.
4. Su L, Weathers DR, Waldron CA. Distinguishing features of focal cemento-osseous dysplasias and cemento-ossifying fibromas. I. A pathologic spectrum of 316 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997; 84: 301-9.
5. Tanaka H, Yoshimoto A, Toyama Y, Iwase T, Hayasaka N, Moro I. Periapical cemental dysplasia with multiple lesions. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987; 16: 757-63.
6. Higuchi Y, Nakamura N, Tashiro H. Clinicopathologic study of cemento-osseous dysplasia producing cysts of the mandible. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1988; 65: 339-42.
7. Fun-chee L, Jinn-fei Y. Florid osseous dysplasia in Orientals. *Oral Surg Oral Pathol Oral Med* 1989; 68: 748-53.
8. Thompson SH, Altini M. Gigantiform cementoma of the jaws. *Head Neck* 1989; 11: 538-44.
9. Arijji Y, Arijji E, Higuchi Y, Kubo S, Nakayama E, Kanda S. Florid cemento-osseous dysplasia. Radiographic study with special emphasis on computed tomography. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994; 78: 391-6.

10. MacDonald-Jankowski DS. Florid osseous dysplasia in Hong Kong Chinese. *Dentomaxillofac Radiol* 1996; 25: 39-41.
11. Punniamoorthy A. Gigantiform cementoma: Review of the literature and a case report. *Br J Oral Surg* 1980; 18: 221-9.
12. Canon JS, Keller EE, Dahlin DC. Gigantiform cementoma: Report of two cases (mother and son). *J Oral Surg* 1980; 38: 65-70.
13. Wolf J, Hietanen J, Sane J. Florid cemento-osseous dysplasia (gigantiform cementoma) in a Caucasian woman. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1989; 27: 46-52.
14. Sedano HO, Kuba R, Gorlin RJ. Autosomal dominant cemental dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1982; 54: 642-6.
15. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. *Oral Maxillofac Surg* 1993; 51: 828-35.
16. Miyauchi M, Ogawa I, Takata T, Ito H, Nikai H, Ijuhin N, et al. Florid cemento-osseous dysplasia with concomitant simple bone cysts: A case in a Japanese woman. *J Oral Pathol Med* 1995; 24: 285-7.
17. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg* 1985; 43: 249-62.
18. Schneider LC, Mesa ML, Brickman JH. Complications of endodontic therapy in florid osseous dysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 64: 114-6.
19. Sewerin I, Bülow S. Dentomaxillofaciale aspekter ved familiær adenomatøs polypose – en oversigt. *Tandlægebladet* 1997; 101: 778-84.

Forfatter

Ib Sewerin, docent, dr.odont.

Afdeling for Radiologi, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet