

ABSTRACT

Glandulær odontogen cyste – et atypisk patienttilfælde

Baggrund – Glandulær odontogen cyste er en sjældent forekommende odontogen cyste, som findes fortrinsvis i underkæben. Cysten optræder oftest i 40-60-årsalderen og er ligeleg fordelt mellem mænd og kvinder. Glandulær odontogen cyste præsenterer sig klinisk som en asymptomatisk og langsomt voksende hævelse. Røntgenologisk ses oftest en velafgrænset uni- eller multilokulær opklaring med tydelig kortikal afgrænsning. Behandling af glandulær odontogen cyste består i kirurgisk eksstirpation. Cysten udviser imidlertid høj recidivfrekvens samt et aggressivt vækstpotentiale, hvorfor langvarig klinisk og radiologisk kontrol er nødvendig.

Patienttilfælde – En 16-årig dreng blev henvist til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, med henblik på diagnostik og behandling af en cystisk opklaring i relation til en retineret hjørnetand i højre side af overkæben. Der blev foretaget cystektomi samt fjernelse af den retinerede hjørnetand. Klinisk og radiologisk kontrol efter ni år viste ikke tegn på recidiv af cysten.

Konklusion – Odontogene cyster er relativt hyppigt forekommende og har generelt en lav recidivfrekvens. Glandulær odontogen cyste har imidlertid et aggressivt vækstmønster og en høj recidiv frekvens. Histologisk diagnostik er derfor vigtig med henblik på klassificering samt efterfølgende fastlæggelse af klinisk og radiologisk kontrol.

Glandulær odontogen cyste

Niårs klinisk og radiologisk opfølgning

Mette Thastum, uddannelsestandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, og Afdeling for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi, Aarhus Universitetshospital

Janek Dalsgaard Jensen, ledende overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital

Giedrus Salkus, overlæge, Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital

Thomas Jensen, forsknings- og uddannelsesansvarlig overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, postgraduate klinisk lektor, ph.d., Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital

Den glandulære odontogene cyste (GOC) er en sjældent forekommende odontogen cyste og blev første gang beskrevet i litteraturen i 1987 (1). I 1992 blev den inkluderet i WHO's klassifikation af odontogene tumorer mv. som en udviklingsbetinget odontogen epitelial cyste (2) (Tabel 1). Senest i 2002 er et tilfælde beskrevet i Tandlægebladet. GOC er karakteriseret ved en velafgrænset uni- eller multilokulær opklaring med tydelig kortikal afgrænsning (3). GOC udgør 0,2 % af alle kæbecyster og forekommer hyppigst i mandiblen (75 %) og hovedsageligt i de anteriore regioner i kæberne (60 %) (3,4). Cysten optræder hyppigst i 40-60-årsalderen med en aldersspredning fra 14-75 år og en lige fordeling mellem mænd og kvinder (3,5). GOC er en intraossøs cyste og præsenterer sig oftest som en asymptomatisk hævelse, der dog kan være ledsaget af ømhed (5). Radiologisk ses en uni- eller multilokulær, velafgrænset opklaring, og cysten kan forekomme i relation til en retineret tand (4). Cysten kan ekspandere væsentligt og involvere rødderne af flere tænder, hvor der kan forekomme rodresorptioner (6) og placering af tænder (7). GOC kan have et aggressivt vækstmønster med høj recidivfrekvens (19,8 % til 50 %), hvorfor histologisk diagnostik er vigtig (8,9). Histologisk kendetegnes GOC ved en cystevæg beklædt med uforhornt pladeepitel af varierende tykkelse, som danner såkaldte epiteliale plakker. Superficielt i epitelet ses kubiske eosinofile celler og mucinproducerende celler med små ansamlinger af mucin intraepiteliaalt. Endvidere ses i epitelet glandulære eller pseudoglandulære strukturer med intraepiteliale crypter eller mikrocyster. I bindevævs-kapslen kan der forekomme forkalkninger (10).

EMNEORD

Cysts; jaw; oral surgical procedure; pathology

Præoperativ røntgen



Fig. 1. Der ses velafgrænset opløring med tydelig kortikal begrænsning og 3+ displaceret til bunden af øjenhulen og kæbeuhulens forvæg.

Fig. 1. Preoperative radiograph. Showing a well-defined radiolucency with displacement of 3+.

I nærværende artikel præsenteres en 16-årig mand med en niårs observationsperiode efter cystektomi og fjernelse af retineret 3+, og de hyppigste differentialdiagnostiske overvejelser diskuteres.

Patienttilfælde

En 16-årig dreng blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, for diagnostik og behandling af en cystisk opløring i højre side af overkæben.

Anamnese

Ved rutinemæssig undersøgelse hos egen tandlæge fandtes en hævelse i omslagsfolden regio 5,4,03+ med samtidig manglende frembrud af 3+. Enorale røntgenoptagelser viste en cystisk opløring i højre side af overkæben, og 3+ kunne ikke lokaliseres. Patienten havde ikke haft nogen symptomer fra hævelsen.

Radiologisk undersøgelse

Panoramooptagelse viste en cystisk opløring strækkende sig fra 6+ til +1 med displacering af 3+ til bunden af øjenhulen (Fig.1).

Objektiv undersøgelse

Ekstraoralt – Der fandtes en synlig hævelse i højre side af mellemansigtet strækkende sig fra nedre øjenlåg til overlæben.

Cystetyper

Odontogene cyster

Udviklingsbetingede

- Gingival cyste
- Odontogen keratocyste
- Follikulær cyste
- Eruptionscyste
- Lateral parodontal cyste
- Glandulær odontogen cyste

Inflammatoriske

- Radikulær cyste
- Inflammatorisk lateral parodontal cyste
- Residual cyste

Non-odontogene cyster

- Naso-palatinal cyste
- Naso-labial cyste

Table 1. WHO's klassifikation af epitheliale cyster fra 1992 (2).

Table 1. WHO's classification of epithelial cyst from 1992 (2).



Under operation



Fig. 2. Kaviteten efter fjernelse af cyste og tand.
Fig. 2. After removal of the cyst and tooth.

Intraoralt – I omslagsfolden regio 6,5,4,03+ kunne en hård hævelse palperes uden bliklågsfornemmelse. Den dækkende slimhinde havde normalt udseende.

Tentativ diagnose og behandling

På baggrund af ovenstående anamnese, klinisk og radiologisk undersøgelse blev der stillet følgende tentative diagnose: Cystis dentalis follicularis.

Behandling

I generel anæstesi blev der lagt en marginal incision fra 7+ til +2 med aflastningssnit. Efter frirougining af slimhinden fandtes en kavitet i forvæggen af kæbehulen. Med knogleafbider blev der udformet en rude, hvorefter cysten og hjørnetanden blev fjernet med god clivage fra omliggende knogle (Fig. 2). Cystevævet blev sendt til histologisk undersøgelse på Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital. Det postoperative forløb var komplikationsfrit. Patienten blev set til kontrol efter tre uger, to, otte og 12 måneder og efterfølgende til kontrol hvert tredje år. Ved afsluttende niårs kontrol er der ikke fundet kliniske eller røntgenologiske tegn til recidiv af cysten (Fig. 3).

Niårs kontrol

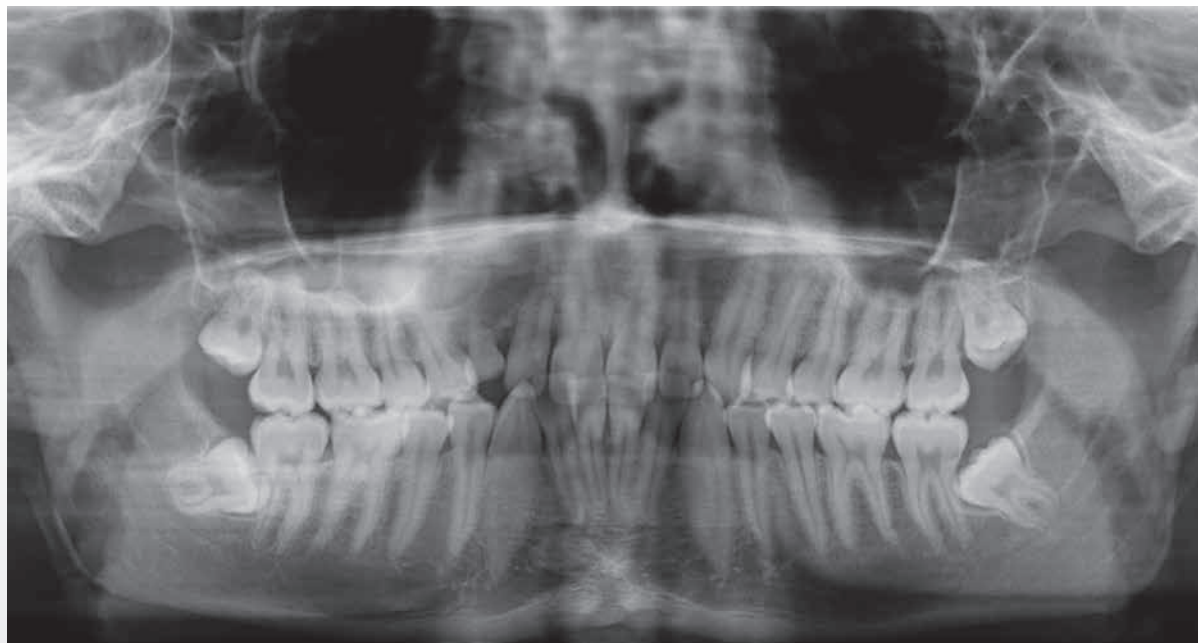


Fig. 3. Røntgenoptagelse viser heling af kaviteten, og der ses ingen tegn til recidiv.
Fig. 3. Panoramic radiograph 9 years later showing filling of the cavity by bone and no sign of recurrence.



Histologisk undersøgelse og diagnose

Præparatet bestod af et vævsstykke (40 x 30 x 20 mm) repræsenterende en unilokulær, tyndvægget hvidlig, cyste, hvor væggen tykkelse varierede mellem ½-1 mm (Fig.4). Cystevæggen var fibrøs og fokalt ødematøs. I bindevævet fandtes enkelte koncentriske calcifikationer med kronisk inflammation sekundært til cysten. Cysten var beklædt med en epitelbeklædning, der basalt bestod af et flerlaget pladeepitel med fokale epiteliale plakker. På epitelets overflade fandtes et mucinproducerende kubisk til cylindrisk cellelag med glandulære/pseudoglandulære strukturer, der var udklædt af det samme enradet til cylindrisk mucinproducerende epitel. Det histologiske billede var således foreneligt med GOC.

Diskussion

I nærværende artikel præsenteres en 16-årig dreng med en GOC i højre side af overkæben. GOC optræder oftest i 40-60-årsalderen og findes fortrinsvis i underkæben. Radiologisk præsenterer GOC sig som uni- eller multilokulære opklaringer i knoglen (11). GOC kan forekomme i relation til en retineret tand og derved ligne den follikulære cyste (4). De kliniske og radiologiske fund i det aktuelle patienttilfælde var således ikke udtalt karakteristisk for en GOC hverken i forhold til lokalisering eller alder, i modsætning til det i Tandlægebladet tidligere præsenterede tilfælde. Her var der tale om en 67-årig kvinde med en GOC i regio -1,2,3. Også i dette tilfælde var behandlingen kirurgisk fjernelse af cysten. Efter treårs kontrolforløb fandtes i dette tilfælde recidiv af cysten, og patienten blev reopereret (5). Recidiv af GOC ses i ca. 30 % inden for de første tre år (11). Derfor bør det postoperative kontrolforløb ikke være kortere end tre år, og der anbefales i litteraturen op til 7-8-års kontrolforløb (4,11).

Kliniske og radiologiske differentialdiagnoser til GOC er i det beskrevne tilfælde især follikulærcyste, keratocyste og adenomatoid odontogen tumor (Faktaboks). Follikulær cyste er den hyppigst forekommende odontogene cyste og optræder i alle aldersgrupper, men opdages oftest i aldersgruppen 10-30 år (12). Lokaliseringen er oftest posterior i underkæben omkring 3. molar, men også overkæbens hjørnetand er blandt de involverede tænder. Radiologisk ses den som en unilokulær opklaring, der hæfter sig til emaljementgrænsen af en retineret tand (13). Derved ses der stor lighed med den aktuelle patient og de kliniske og radiologiske karakteristika, der kendetegner den follikulære cyste. Histologisk kendetegnes follikulærcyste ved en beklædning med uforhornet pladeepitel og reduceret emaljeepitel. Der findes ikke glandulære strukturer, og histologisk har follikulærcyste kun få ligheder med GOC.

Keratocysten er klinisk og radiologisk vanskelig at adskille fra GOC. Begge forekommer fortrinsvis i underkæben og præsenterer sig som en uni- eller multilokulær velafgrænset opklaring med tydelig kortikal afgrænsning. Keratocysten vil dog oftest optræde posterior i underkæben, og GOC er oftere set

KLINISK RELEVANS

Kæbecyster er relativt hyppigt forekommende og præsenterer sig ofte klinisk som symptomløse og langsomt voksende hævelser med en blålig misfarvning af mundslimhinden. Behandling er oftest kirurgisk eksstirpation, og de fleste

cyster i mundhulen har en lav recidivfrekvens. Imidlertid findes der odontogene cyster med et aggressivt vækstpotentiale og høj recidiv frekvens, hvorfor kendskab til odontogene cysters klassifikation og symptomatologi er vigtigt.

Histologisk billede

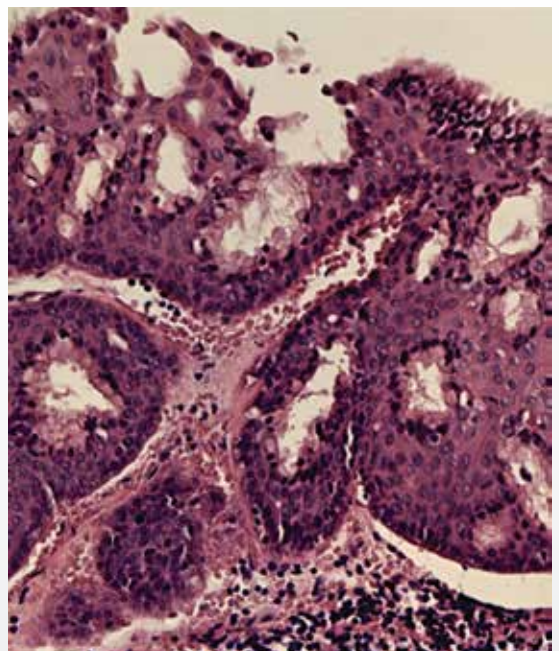


Fig. 4. Cysteutklædning repræsenteret af pladeepitel med yderste cellerække bestående af mucinøst cylinderepitel (finug) samt dannelse af intraepiteliale kirtellignende strukturer. (HE-farvning, 200 x).

Fig. 4. Cystic epithelial lining of non-keratinized squamous epithelium with columnar surface cells and intra-epithelial glandlike structures (200 x).



Faktaboks

Glandulær Odontogen Cyste

Alder: Hyppigst mellem 40-60 år

Køn: Ligeligt fordelt

Radiologi: Velafgrænset uni- eller multilokulær opklaring med tydelig kortikal afgrænsning

Lokalisation: Oftest anteriort i mandiblen

Prognose: 30 % risiko for recidiv. Der anbefales langvarigt kontrolforløb

Follikulær Cyste

Alder: Hyppigst i aldersgruppen 10-30 år

Køn: Lille overvægt af mænd

Radiologi: Unilokulær opklaring associeret med kronen af en tand. Kan displacere tanden.

Lokalisation: Posterior i mandiblen eller anteriort i maksillen

Prognose: God, recidiv er ikke almindeligt

Keratocyste

Alder: Hyppigst i aldersgruppen 10-40 år

Køn: Lille overvægt af mænd

Radiologi: Velafgrænset opklaring, store læsioner, vil især i ramus mandibulae optræde multilokulært. 25-40 % ses i relation til retineret tand

Lokalisation: Posterior i mandiblen 50 %, posterior i maksillen 20 %

Prognose: Recidiv i ca. 30 %. Lang followup

NB: Multiple keratocyster ses i relation til *Nevoid basalcell carcinoma syndrom*

Adenomatoid odontogen tumor

Alder: Hyppigst i aldersgruppen 10-19 år.

Køn: Overvægt af kvinder

Radiologi: Unilokulær opklaring associeret til en retineret tand, typisk hjørnetand. Opklaringen kan strække sig mod apex af tanden forbi emaljementgrænsen. Fine calcifikationer (snefnug) kan ses i det radiolucente område

Lokalisation: Anteriort i kæberne. Oftest i maksillen

Prognose: God. Recidiv er ikke almindeligt.

anteriort i underkæben. Endvidere ses keratocysten hyppigere hos yngre individer (13). Keratocysten udviser histologisk et parakeratiniseret epitel og veldefineret basalcellelag med palisadestillede kerner, hvilket adskiller den fra GOC, som tidligere nævnt er beklædt med et ikke-keratiniseret pladeepitel. I begge cyster kan der ses intraepiteliale mikrocyster (3,13).

Adenomatoid odontogen tumor er en benign langsomt voksende tumor, der findes i en central og perifer variant (14). Adenomatoid odontogen tumor ses ikke hos patienter over 30 år, og langt de fleste diagnosticeres, når patienten er mellem 10 og 19 år (15). I ca. 75 % af tilfældene vil tumoren forekomme radiologisk som en unilokulær opklaring associeret med en retineret tand, oftest en hjørnetand (16). Radiologisk kan adenomatoid odontogen tumor differentieres fra GOC ved fine calcifikationer (snefnug) i det radiolucente område (14). Histo-

logisk har både adenomatoid odontogen tumor og GOC strukturer, der imiterer spytkirtelvæv, men er ellers ikke histologisk vanskelige at adskille. På baggrund af alder og lokalisation af cysten hos det beskrevne tilfælde ville adenomatoid odontogen tumor være en mulig tentativ diagnose.

GOC har flere kliniske og radiologiske kendetegn, der let kan forveksles med forskellige patologiske tilstande i kæberne. Den endelige diagnostik stilles derfor altid ved en klinisk og histologisk undersøgelse.

Recidivfrekvensen efter fjernelse af odontogene cyster er lav. Imidlertid har GOC et aggressivt vækstpotentiale og høj recidiv tendens, hvorfor et langvarigt klinisk og radiologisk kontrolforløb er nødvendigt (9).

Nærværende patienttilfælde fik foretaget cystektomi, og niårs klinisk og radiologisk kontrol viste ikke tegn på recidiv af cysten.

ABSTRACT (ENGLISH)

The glandular odontogenic cyst

Background – Glandular odontogenic cysts are rare intrabony cysts, with a preferred site in the anterior part of the mandible. The cyst occurs mostly between the ages of 40 and 60 with no significant difference between the sexes. The glandular odontogenic cyst often presents as an asymptomatic and slow growing swelling and radiographically it appears as either a uni- or multi-loculated welldefined radiolucency. Treatment of the cyst is surgical extirpation, but since GOC has a more aggressive growth pattern and higher recurrence rate, histological correct diagnosis is of importance in a long-term follow-up programme.

Case study – A sixteen-year-old boy was referred to the Depart-

ment of Oral and Maxillofacial Surgery, Aalborg University Hospital, for diagnosis and treatment of a cyst in relation to an impacted canine in the upper jaw. The patient was treated with surgical enucleating of the cyst and concomitant removal of the impacted tooth. Histological examination revealed the diagnosis glandular odontogenic cyst. At 9 years follow-up, the patient showed no sign of recurrence.

Conclusion – Odontogenic cysts are common and generally with a low recurrence frequency. However, glandular odontogenic cysts have an aggressive behaviour and high rate of recurrence and histological examination and diagnosis is important for the right follow-up programme.

Litteratur

- Padayachee A, Van Wyk CW. Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumour: sialo-odontogenic cyst? *J Oral Pathol* 1987;16:499-504.
- Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumours*. 2nd ed. Berlin: Springer;1992.
- Kaplan I, Anavi Y, Hirshberg A. Glandular odontogenic cyst: a challenge in diagnosis and treatment. *Oral Dis*. 2008;14:575-81.
- MacDonald-Jankowski DS. Glandular odontogenic cyst: systematic review. *Dentomaxillofac Radiol* 2010;39:127-39.
- Lyng M, Aaboe M, Reibel J et al. Glandulær odontogen cyste: En oversigt og præsentation af et tilfælde. *Tandlægebladet* 2002;12:966-71.
- Patron M, Colmenero C, Larrauri J. Glandular odontogenic cyst: clinicopathologic analysis of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991;72:71-4.
- Ficarra G, Chou L, Panzoni E. Glandular odontogenic cyst (sialo-odontogenic cyst). *Int J Oral Maxillofac Surg* 1990;19:331-3.
- Mascitti M, Santarelli A, Sabatucci A et al. *Open Dent J* 2014;8:1-12.
- Fowler CB, Brannon RB, Kessler HP et al. Glandular odontogenic cyst: analysis of 46 cases with special emphasis on microscopic criteria for diagnosis. *Head Neck Pathol* 2011;5:364-75.
- Gardner DG, Kessler HP, Morency R et al. The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 1988;17:359-66.
- Sittitavornwong S, Koehler JR, Said-Al-Naief N. Glandular odontogenic cyst of the anterior maxilla: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2006;64:740-5.
- Jones AV, Craig GT, Franklin CD. Range and demographics of odontogenic cysts diagnosed in a UK population over a 30-year period. *J Oral Pathol Med* 2006;35:500-7.
- Shear M, Speight P. Cysts of the oral and maxillofacial regions. 4th ed. Oxford: Wiley-Blackwell, 2007.
- Barnes L, Eveson J, Reichart P et al. *WHO classification Head and Neck tumours*. Lyon: IARC Press, 2005.
- Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral & maxillofacial pathology*. 2nd ed. Philadelphia:W.B. Saunders Company, 2002; 621-23.
- Philipsen HP, Srisuwan T, Reichart PA et al. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking periapical (radicular) cyst: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:246-8.