

## Ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη. Αναφορά περίπτωσης και βιβλιογραφική ανασκόπηση.

Ι. ΤΗΛΑΒΕΡΙΔΗΣ<sup>1</sup>, Σ. ΤΣΟΔΟΥΛΟΣ<sup>2</sup>, Μ. ΒΑΦΕΙΑΔΟΥ<sup>3</sup>  
Από τη Στοματογναθοπροσωπική Χειρουργική Κλινική του Α.Π.Θ.

### Calcifying odontogenic cyst. Case report and review of the literature.

J. TILAVERIDIS<sup>1</sup>, S. TSODOULOS<sup>2</sup>, M. VAFIADOU<sup>3</sup>  
Dept. Oral and Maxillofacial Surgery, Aristotle University of Thessaloniki.

#### Περίληψη

Η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη είναι μια σπάνια κυστική αλλοίωση των γνάθων, η οποία προέρχεται από υπολείμματα της οδοντογονίας. Η κύστη χαρακτηρίζεται από την ύπαρξη επιθηλιακής επένδυσης, την ύπαρξη των χαρακτηριστικών για τη βλάβη κυττάρων φαντασμάτων (ghost cells) και την ύπαρξη σκληρών οδοντικών ιστών. Οι βλάβες αυτές εμφανίζονται ως κεντρικές ή ως περιφερικές αλλοιώσεις των γνάθων. Συνήθως έχουν κυστική μορφή, αλλά σε μικρό ποσοστό εμφανίζονται με συμπαγή μορφή που χαρακτηρίζεται από την τοπική καταστροφή των ιστών και επιθετική συμπεριφορά.

Στην εργασία μας παρουσιάζουμε μια σπάνια περίπτωση ενασβεστωμένης οδοντογενούς κύστης που εντοπίζονταν στην πρόσθια περιοχή της κάτω γνάθου. Η αλλοίωση ήταν ανώδυνη και στην ψηλάφηση εμφάνιζε κλυδασμό. Η ακτινογραφία έδειξε την ύπαρξη ακτινοδιαγαστικής αλλοίωσης αντίστοιχη προς τα ακρορριζία των δεξιών κάτω τομέων και του σύστοιχου κυνόδοντα. Τα δόντια αυτά, ωστόσο, αντιδρούσαν κατά τη δοκιμασία ζωτικότητας. Η αλλοίωση αφαιρέθηκε υπό τοπική αναισθησία και η ιστολογική εξέταση έδειξε ότι επρόκειτο για ενασβεστωμένη οδοντογενή κύστη. Κατά το διάστημα της τριετούς παρακολούθησης, η ασθενής δεν εμφάνισε σημεία υποτροπής της κυστικής αλλοίωσης.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: Ενασβεστωμένη, κύστη, οδοντογενής

#### Summary

Calcifying odontogenic cyst represents a rare cystic lesion which derived from odontogenic epithelial remnants. It consists of epithelial lining with a well defined epithelial lining, the presence of ghost cells and hard odontogenic tissues.

Calcifying odontogenic cysts are manifestant either as central or peripheral lesion of the jaws. Most cases are of cystic form, but a small percentage is presented as a solid lesion characterized by locally destructive and aggressive behavior.

In our paper we presented a rare case of calcifying odontogenic cyst, located in the anterior part of the mandible. The lesion was painless and fluctuant. The X-ray showed a well defined radiolucent area below the apices of the right mandibular incisors and canine. The related teeth were vital. The lesion was removed under local anesthesia and the histologic examination showed a calcifying odontogenic cyst. The patient has been observed for three years without any clinical or radiographic evidence of recurrence.

KEY WORDS: Calcifying, cyst, odontogenic.

Στάλθηκε στις 25.5.2005. Εγκρίθηκε στις 8.6.2005.

<sup>1</sup> Οδοντίατρος, Ιατρός, Στοματογναθοπροσωπικός χειρουργός, Δρ ΑΠΘ.

<sup>2</sup> Επίκουρος Καθηγητής, Στοματογναθοπροσωπικής Χειρουργικής

<sup>3</sup> Οδοντίατρος

Received on 25<sup>th</sup> May, 2005. Accepted on 8<sup>th</sup> June, 2005.

<sup>1</sup> Dentist

<sup>2</sup> Assistant Professor

<sup>3</sup> Dentist

## Εισαγωγή

Η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη είναι σπάνια κυστική βλάβη, που κατατάσσεται στους οδοντογενείς όγκους, σύμφωνα με την ταξινόμηση του Παγκόσμιου Οργανισμού Υγείας του 1992 και αντιπροσωπεύει το 1% των κύστεων των γνάθων. Αναγνωρίστηκε ως ξεχωριστή κλινική οντότητα για πρώτη φορά το 1962 από τον Gorlin, ενώ μέχρι τότε θεωρούνταν ως άτυπη μορφή αδμαντινοβλαστώματος ή ως μορφή οδοντώματος<sup>1,2</sup>. Με την αναγνώρισή της ως ξεχωριστής νοσολογικής οντότητας, έχουν περιγραφεί λεπτομερώς τα ιστολογικά χαρακτηριστικά της<sup>2</sup>.

Πρόκειται για κυστική αλλοίωση το τοίχωμα της οποίας αποτελείται από επιθήλιο με καλά διαφοροποιημένη τη βασική του στιβάδα, ενώ χαρακτηριστικό ιστολογικό εύρημα αποτελούν τα κύτταρα φαντάσματα (ghost cells), που εμφανίζονται σε μάζες στο επιθήλιο ή στην ινώδη κάψα της αλλοίωσης<sup>3,4</sup>. Τα κύτταρα φαντάσματα είναι επιθηλιακά κύτταρα με αυξημένη κερατινοποίηση, χωρίς οργανίδια στο κυτταρόπλασμά τους και με υπολείμματα πυρήνα σε διάφορα στάδια εκφύλισης<sup>5</sup>.

Η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη εμφανίζεται είτε σαν κεντρική βλάβη, που είναι και η συχνότερη και προσβάλλει κυρίως άτομα που διανύουν τη 2<sup>η</sup> δεκαετία, είτε περιφερική που είναι σπανιότερη και προσβάλλει συχνότερα άτομα που βρίσκονται στην 6η δεκαετία της ζωής τους<sup>3</sup>.

Εν τούτοις σημαντικές διαφωνίες διατυπώθηκαν σχετικά με τον κυστικό χαρακτήρα της αλλοίωσης. Η διχογνωμία αυτή οδήγησε στο διαχωρισμό των αλλοιώσεων σε βλάβες που κατατάσσονται άλλες στις κύστεις και άλλες στα νεοπλάσματα<sup>6</sup>.

Στην εργασία μας παρουσιάζουμε μια σπάνια περίπτωση ενασβεστωμένης οδοντογενούς κύστης που εντοπιζόταν στην πρόσθια περιοχή της κάτω γνάθου και παράλληλα γίνεται ανασκόπηση της διεθνούς βιβλιογραφίας. Στην εργασία συζητούνται επίσης και οι προβληματισμοί που διατυπώθηκαν σχετικά με το νεοπλασματικό χαρακτήρα της βλάβης.

## Αναφορά της περίπτωσης

Γυναίκα ασθενής ηλικίας 47 ετών, χωρίς βεβαρημένο ιατρικό ιστορικό, προσήλθε με ευμεγέθη διόγκωση φυσιολογικής χροιάς στα προσπεφυκότεα ούλα της κάτω γνάθου, αντίστοιχα προς τους κεντρικούς τομείς, τον δεξιό πλάγιο τομέα, καθώς και τον παρακείμενο κυνόδοντα (Εικ.1). Η διόγκωση παρουσίαζε μικρού βαθμού κλυδασμό και εμφανίστηκε δύο περίπου έτη πριν την προσέλευση της ασθενούς στην κλινική. Η ασθενής προσήλθε λόγω ελαφριάς αίσθησης αιμωδίας στους 31 και 43. Όλα τα δόντια της ασθενούς στην περιοχή που υπήρχε η διόγκωση παρουσίαζαν αντίδραση με τις

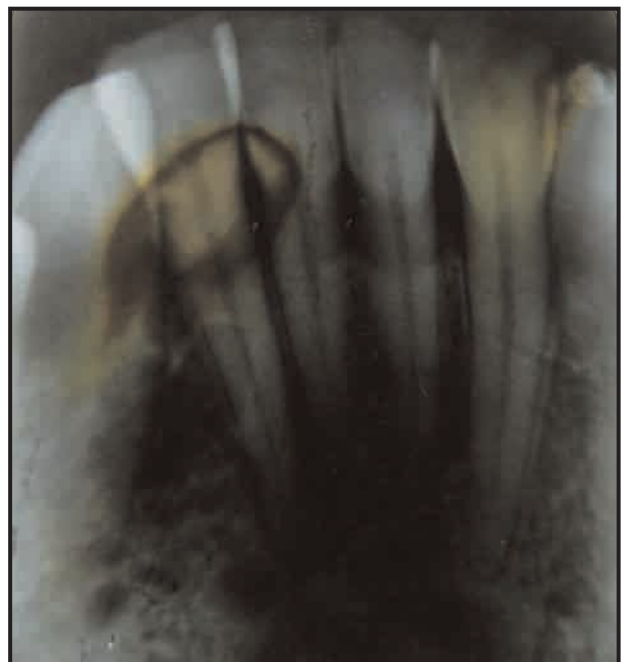
δοκιμασίες ζωτικότητας τόσο στο θερμό – ψυχρό όσο και με τον ηλεκτρικό πολφοδοκιμαστήρα. Κινητικότητα, τερηδονισμός, παλιές εμφράξεις και περιοδοντική νόσος δεν παρατηρήθηκαν στα σχετιζόμενα δόντια, ούτε και ευαισθησία τους στην επίκρουση. Επίσης, δεν υπήρχε ιστορικό πυρετού ή πόνου στην περιοχή της βλάβης, ενώ δε διαπιστώθηκε η ύπαρξη διογκωμένων επιχώριων λεμφαδένων.

Από τον ακτινογραφικό έλεγχο της περιοχής διαπιστώθηκε η ύπαρξη ακτινοδιαυγαστικής αλλοίωσης στην περιοχή του γενείου, αντίστοιχα προς τα ακρορριζία των 32, 31, 41 και 42 (Εικ. 2).

Πριν από την επέμβαση για εκπαρήνιση της κυστικής αλλοίωσης, πραγματοποιήθηκε αναρρόφηση υγρού με σύριγγα από το σημείο του μεγαλύτερου κλυδασμού, η οποία απέδωσε μικρή ποσότητα οροαιματηρού υγρού.



Εικ. 1. Αρχική εμφάνιση της κύστης.



Εικ. 2. Ακτινογραφική εμφάνιση της βλάβης.

Με τοπική αναισθησία πραγματοποιήθηκε τρίπλευρος τραπεζοειδής κρημνός που εκτεινόταν από τον 43 έως τον 32 (Εικ. 3). Κατά την αποκόλληση του κρημνού διαπιστώθηκε ότι το προστομακό πέταλο αντίστοιχα προς την βλάβη ήταν παχυρώδες και αφαιρέθηκε με τη βοήθεια οστεοτόμου, προκειμένου να αποκαλυφθεί η αλλοίωση (Εικ. 4). Ακολούθησε, στη συνέχεια, αποκόλληση, αφαίρεση της βλάβης με απόξεση (Εικ. 5) και επαναφορά και συρραφή του κρημνού (Εικ. 6).

Η ιστοπαθολογική εξέταση έδειξε την παρουσία κυστικού μορφώματος, του οποίου η εσωτερική επιφάνεια επαλειφόταν από δικτυωτό πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο (Εικ. 7), που στην επιφάνεια του εμφάνιζε κερατινοποίηση, συνήθως, μεμονωμένων πλακωδών επιθηλιακών κυττάρων, ορισμένα από τα οποία διαγράφονταν σκιωδώς (ghost cells) (Εικ. 8). Σε ορισμένα από τα κύτταρα αυτά παρατηρήθηκαν μικρές κοκκιδείς επασβεστώσεις.



Εικ. 3. Σχεδίαση της τομής.



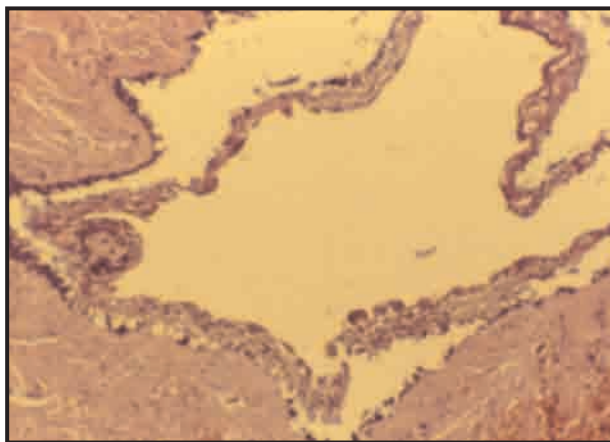
Εικ. 4. Αποκάλυψη της αλλοίωσης.



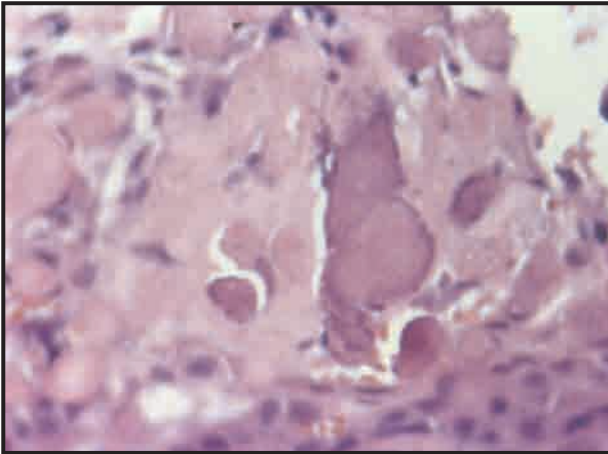
Εικ. 5. Το χειρουργικό παρασκεύασμα



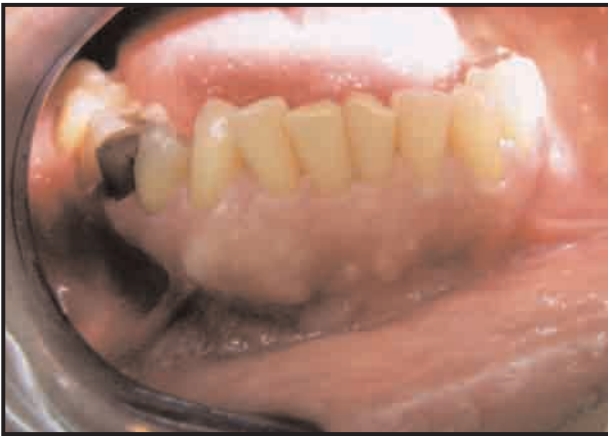
Εικ. 6. Η ασθενής μετά τη συρραφή.



Εικ. 7. Ιστολογική εικόνα της βλάβης. Διακρίνεται το επιθήλιο που επενδύει την κυστική κοιλότητα.



Εικ. 8. Σε μεγαλύτερη μεγέθυνση διακρίνεται η παρουσία κυττάρων φαντασμάτων μέσα στο επιθήλιο.



Εικ. 9. Κλινική εικόνα της ασθενούς μετά την αφαίρεση της κύστης.



Εικ. 10. Ακτινογραφία της ασθενούς μετά την αφαίρεση της κύστης.

Η μετεγχειρητική πορεία της ασθενούς ήταν ομαλή, χωρίς επιπλοκές (Εικ. 9), και μετά από τριετή παρακολούθηση δεν παρατηρήθηκε υποτροπή της κύστης (Εικ. 10).

## Συζήτηση

Η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη είναι μια σπάνια οδοντογενής βλάβη των γνάθων, με μεγάλο φάσμα κλινικών και ιστοπαθολογικών χαρακτηριστικών<sup>6</sup>. Πρόκειται για ασυμπτωματική, συνήθως, βλάβη που αποκαλύπτεται μετά από τυχαίο κλινικό ή ακτινογραφικό έλεγχο<sup>3,6</sup>. Η αλλοίωση ανεξάρτητα, αν έχει κεντρική ή περιφερική εντόπιση εμφανίζει την ίδια ιστολογική μορφή, παρουσιάζει, όμως, διαφορές στη κλινική εικόνα και τη συνήθη ηλικία εμφάνισης. Η μέση ηλικία εντόπισης για την κεντρική κύστη είναι τα 33 χρόνια<sup>1,3,7,8,9</sup>, ενώ η περιφερική αναπτύσσεται κυρίως στην 6η δεκαετία της ζωής<sup>8</sup>. Ως προς το φύλο των ασθενών, αναφέρεται μικρή προτίμηση στους άντρες, η οποία όμως δεν είναι στατιστικά σημαντική. Τόσο η κεντρική όσο και η περιφερική κύστη εντοπίζονται με την ίδια συχνότητα στην άνω και την κάτω γνάθο και, κυρίως, στο πρόσθιο τμήμα τους, στην περιοχή τομέων-κυνοδόντων, συχνότερα προς τα προσπεφυκώτα ούλα<sup>1,3,6-11</sup>.

Η κύστη που εντοπίζεται κεντρικά, εμφανίζεται κλινικά ως ανώδυνη, σκληρή διόγκωση στην άνω ή στην κάτω γνάθο. Σε ορισμένες περιπτώσεις παρατηρείται διάβρωση του προστομαϊακού οστικού πετάλου. Πόνος εμφανίζεται σε λίγες μόνο περιπτώσεις και, συνήθως, οφείλεται σε δευτερογενή επιμόλυνση. Συχνά, η βλάβη σχετίζεται με δόντια που δεν έχουν ανατείλει και σε ορισμένες μάλιστα περιπτώσεις παρατηρείται η ύπαρξη παρεκτόπισης ή και απορρόφησης ακόμη των ριζών των δοντιών που σχετίζονται με την κύστη<sup>8</sup>. Ακτινογραφικά, εμφανίζεται συνήθως ως μονόχωρη σαφώς περιγεγραμμένη ακτινοδιαυγαστική αλλοίωση<sup>1,3,6,8,9,12,13,14</sup>. Σε μεταγενέστερα στάδια εξέλιξης της βλάβης, εμφανίζονται ακτινοσκοιερές περιοχές στο εσωτερικό της που αποδίδονται στο σχηματισμό δυσπλαστικών σκληρών οδοντικών ιστών ή σε ενασβεστίωση των κυττάρων φαντασμάτων<sup>6,10</sup>. Η περιφερική κύστη, αντιπροσωπεύει το 12-20% του συνόλου των ενασβεστωμένων οδοντογενών κύστεων και εμφανίζεται ως ασυμπτωματική, καλώς περιγεγραμμένη διόγκωση. Η επιφάνειά της είναι, συνήθως, λεία και σπανιότερα οζώδης ή θηλωματώδης. Έχει χροιά φυσιολογική ρόδινη ή άλλοτε περισσότερο πορφυρή και σύσταση σκληροελαστική<sup>3,8,9,10</sup>. Η συμπεριφορά της είναι λιγότερο επιθετική από την κεντρική και, συνήθως, δεν υποτροπιάζει μετά την αφαίρεσή της<sup>6</sup>. Ανεξάρτητα από την εντόπιση - κεντρική ή περιφερική- η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη αντιμετωπίζεται χειρουργικά με εκπυρήνισή<sup>8</sup>.

Ο Παγκόσμιος Οργανισμός Υγείας, το 1992, περιγράφει την αλλοίωση ως μη νεοπλασματική κύστη, αλλά την κατατάσσει στους καλοήθεις όγκους. Σύμφωνα με την Επιτροπή για τον Ιστολογικό Τύπο των Οδοντογενών Όγκων, πρόκειται για "μια κυστική αλλοίωση στην οποία το επιθηλιακό επένδυμα παρουσιάζει μια

καλώς ορισμένη βασική στιβάδα κυλινδρικών κυττάρων, που επαλείφεται από δικτυωτό πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο και από την ύπαρξη χαρακτηριστικών επιθηλιακών κυττάρων φαντάσμάτων (ghost cells), που μπορεί να βρίσκονται στο επιθήλιο ή στην ινώδη κάψα. Τα κύτταρα φαντάσματα, που αποτελούν χαρακτηριστικό εύρημα στις ενασβεστωμένες οδοντογενείς κύστεις, είναι μεγάλα κύτταρα, ελαφρώς, ηωσινόφιλα, που βρίσκονται συνήθως σε μάζες ή και μεμονωμένα, τόσο στο επιθήλιο, όσο και στο συνδετικό ιστό<sup>3,6,11</sup>. Στο κυτταρόπλασμά τους περιέχουν τονοϊνίδια, ενώ η κυτταρική και πυρηνική τους μεμβράνη διαγράφεται αμυδρά<sup>3</sup>. Πιστεύεται ότι τα κύτταρα αυτά σχετίζονται με φυσιολογική ή παθολογική κερατινοποίηση, αν και υπάρχει διχογνωμία σχετικά με τη σημασία της ύπαρξής τους στο τοίχωμα των κύστεων<sup>10,15,16</sup>. Οι Freedman και συν.<sup>17</sup> θεωρούν πως πρόκειται για κύτταρα ικανά να παράγουν υπόστρωμα αδαμαντίνης, καθώς, θεωρούν την ενασβεστωμένη οδοντογενή κύστη αλλοίωση, καλά διαφοροποιημένων αδαμαντινοβλαστών, με ένα κυρίαρχο κυστικό τμήμα. Η συσσώρευση στρώματος αδαμαντίνης μέσα στα κύτταρα, ίσως, να οφείλεται στην ανικανότητά τους να απεκκρίνουν προϊόντα που παράγονται ενδοκυτταρικά. Τα κύτταρα φαντάσματα μπορεί να υποστούν ενασβεστίωση, ενώ σε μερικές περιπτώσεις παρατηρείται η ύπαρξη δυσπλαστικής οδοντίνης σε επαφή με τη βασική στιβάδα του επιθηλίου. Άλλοτε, στο τοίχωμα της κύστης απαντώνται περιοχές με εκτεταμένη παραγωγή σκληρού οδοντικού ιστού, που μοιάζουν ιστολογικά με σύμπλοκο ή σύμμεικτο οδόντωμα (complex or compound odontoma)<sup>1,3-6,9,10,15,18-20</sup>. Ένα διαφορετικό ιστολογικό εύρημα που απαντάται σε ορισμένες μόνο κύστεις είναι η στίξη μελανίνης (melanin pigmentation), χωρίς, ωστόσο, να έχει διευκρινισθεί ο βιολογικός της ρόλος<sup>1,10</sup>.

Τα κύτταρα φαντάσματα, πάντως, δεν αποτελούν παθογνωμονικό γνώρισμα των ενασβεστωμένων οδοντογενών κύστεων, καθώς η ύπαρξή τους αναφέρεται και σε βλάβες οδοντογενούς και μη οδοντογενούς αιτιολογίας, όπως το αδαμαντινοβλάστωμα, οδοντογενείς όγκους, οδοντώματα, στο κρανιοφαρυγγίωμα και στο δερματικό ενασβεστωμένο επιθηλίωμα του Mahlerbe<sup>1,3,6,10,11</sup>.

Ο παθογενετικός μηχανισμός δημιουργίας των ενασβεστωμένων οδοντογενών κύστεων παραμένει άγνωστος, αν και είναι, γενικώς, αποδεκτό, ότι προέρχονται από το οδοντογενές επιθήλιο. Μελέτες με συμβατικό και με ηλεκτρονικό μικροσκόπιο, απέδειξαν την ύπαρξη τεσσάρων τύπων κυττάρων στο επιθήλιο της κύστης, τα οποία είχαν υποστεί διάφορου βαθμού κερατινοποίηση. Είναι πιθανό ότι τα κύτταρα φαντάσματα προέρχονται από τα ωχρά κύτταρα του αστεροειδούς δικτύου. Βελονοειδείς κρύσταλλοι, επίσης, παρατηρήθηκαν σε επαφή με μικροκυστικούς σχηματισμούς που είναι διάσπαρτοι ανάμεσα στις δεσμίδες τονοϊνιδίων των κυττάρων

φαντασμάτων. Οι κρύσταλλοι αυτοί θεωρήθηκαν ως αρχικές θέσεις ενασβεστίωσης<sup>18</sup>.

Η ανοσοϊστοχημεία, επίσης, με την ανίχνευση συγκεκριμένων πρωτεϊνών βοήθησε σημαντικά στην ταυτοποίηση αρκετών περιπτώσεων ενασβεστωμένων οδοντογενών κύστεων. Τέτοιες ουσίες είναι η αδαμαντινογενίνη, η κυταροκερατίνη-19, η πρωτεΐνη Bcl-2 και το αντιγόνο Ki-67<sup>15</sup>. Η αδαμαντινογενίνη (amelogenin) που είναι μια πρωτεΐνη απαραίτητη για την ανάπτυξη του υποστρώματος της αδαμαντίνης κατά τη διάρκεια της διάπλασής της, ανιχνεύεται στο οδοντικό σπέρμα<sup>21</sup>, καθώς, επίσης και σε διάφορους οδοντογενείς όγκους<sup>22</sup>. Η ανίχνευσή της, ωστόσο, και στο κυτταρόπλασμα των κυττάρων φαντασμάτων σε όλες σχεδόν τις ενασβεστωμένες οδοντογενείς κύστεις, είναι πιθανό να υποδηλώνει την ύπαρξη κυττάρων με χαρακτηριστικά αδαμαντινοβλαστών στο επιθήλιο των κύστεων αυτών, τα οποία εν συνεχεία να διαφοροποιούνται σε κύτταρα φαντάσματα<sup>15</sup>. Η κυταροκερατίνη-19 (cytokeratin-19, CK-19), επίσης, είναι μια πρωτεΐνη που φυσιολογικά ανιχνεύεται στα επιθηλιακά στοιχεία των οδοντικών σπερμάτων, υποδηλώνοντας την επιθηλιακή τους προέλευση, αλλά ανιχνεύεται επίσης και στους οδοντογενείς όγκους. Ειδικότερα στην ενασβεστωμένη οδοντογενή κύστη βρέθηκε στο επιθήλιο, όχι όμως και στα κύτταρα φαντάσματα, γεγονός που σημαίνει πως το επιθηλιακό επένδυμα έχει ιδιότητες οδοντογενούς επιθηλίου. Το γονίδιο Bcl-2 είναι ένα πρωτοογκογονίδιο το οποίο παράγει την αντίστοιχη πρωτεΐνη, η οποία σχετίζεται με τη διαδικασία της απόπτωσης των κυττάρων και φυσιολογικά απαντάται στο οδοντικό σπέρμα και στους οδοντογενείς όγκους. Η ύπαρξη της ως άνω πρωτεΐνης στο επιθήλιο της εν λόγω κύστης, οδηγεί στο συμπέρασμα ότι τα κύτταρα που βρίσκονται στο επιθηλιακό επένδυμά της, μπορεί να διαφύγουν τον κυτταρικό θάνατο σε αντίθεση με τα κύτταρα φαντάσματα, στα οποία δεν ανιχνεύεται, συνήθως, η συγκεκριμένη πρωτεΐνη. Ακόμη υψηλότερα επίπεδα της παραπάνω πρωτεΐνης ανιχνεύονται στις ενασβεστωμένες οδοντογενείς κύστεις που συνυπάρχουν με οδόντωμα<sup>23,24</sup>. Τέλος, το αντιγόνο Ki-67 εκφράζεται στους παραγωγικούς τύπους επιθηλίου της ενασβεστωμένης οδοντογενούς κύστης, μέσω των G1, S, G<sub>2</sub> και M φάσεων και, ανοσοϊστοχημικά, είναι ένας αξιόπιστος δείκτης κυτταρικής παραγωγής. Τα κύτταρα του επιθηλιακού επενδύματος έδειξαν σποραδικά θετική αντίδραση στο Ki-67, ενώ στα κύτταρα φαντάσματα η αντίδραση ήταν αρνητική. Όταν ανιχνεύεται σε υψηλότερα επίπεδα σχετίζεται με αυξημένο πολλαπλασιασμό αδαμαντινοβλαστών ή με συνδυασμό οδοντώματος<sup>15</sup>.

Οι Praetorius και συν.<sup>25</sup> (1981), διαχώρισαν τους κυστικούς ενασβεστωμένους όγκους ανάλογα με τα ιστολογικά τους χαρακτηριστικά σε δύο τύπους. Στον πρώτο, περιελήφθησαν όλες οι κυστικές βλάβες και

στη συνέχεια διαχωρίστηκαν στους παρακάτω τρεις τύπους: τύπος 1A στον οποίο περιλαμβάνονται οι απλές ενασβεστωμένες κύστεις με ή χωρίς την ύπαρξη δυσπλαστικής οδοντίνης, στον τύπο 1B που έχει τα ίδια ιστολογικά χαρακτηριστικά με τον προηγούμενο, συνοδεύεται, όμως, από την συνύπαρξη σύμπλοκου ή σύμμικτου οδοντώματος και, τέλος, στον τύπο 1Γ στον οποίο το επιθήλιο χαρακτηρίζεται από την ύπαρξη κυττάρων αδαμαντινοβλαστικού τύπου. Στο δεύτερο τύπο περιλαμβάνονται οι συμπαγείς βλάβες που θεωρούνται η νεοπλασματική μορφή της κύστης (οδοντογενής όγκος), στην οποία κυριαρχεί το αδαμαντινοβλαστικό επιθήλιο<sup>16,26,27</sup>. Ο οδοντογενής όγκος ή οδοντογενές καρκίνωμα των κυττάρων φαντασμάτων (Odontogenic Ghost Cell Tumor, OGCT) είναι πολύ σπάνιος και θεωρείται αληθές νεόπλασμα, λόγω της παραγωγής οδοντογενούς επιθηλίου σε συμπαγές υπόστρωμα<sup>1,4,5,6,9,10,16,28</sup>.

Η ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη μπορεί συχνά να εμφανιστεί σε σχέση με άλλους οδοντογενείς όγκους και, κυρίως, με οδόντωμα, σε ποσοστό 24% των περιπτώσεων της κύστης. Υποστηρίζεται, μάλιστα, πως πιθανόν πρόκειται για ξεχωριστή νοσολογική οντότητα<sup>7</sup>. Η αλλοίωση δείχνει προτίμηση στους άντρες (2:1), ο μέσος όρος ηλικίας είναι τα 16 χρόνια και εμφανίζεται, συνηθέστερα, στην άνω γνάθο. Ιστολογικά, η μόνη διαφορά από την κύστη είναι η ύπαρξη οδοντόμορφων σχηματισμών που διαφέρουν μεταξύ τους σε μέγεθος, αριθμό και στάδιο ανάπτυξης είτε μεταξύ των διαφόρων περιπτώσεων είτε ακόμη και σε διάφορες περιοχές της ίδιας αλλοίωσης. Κατά κανόνα, τα οδοντώματα είναι αναμεμιγμένα με τα επιθηλιακά στοιχεία της κύστης και αποτελούν μια αλλοίωση. Σε ορισμένες όμως βλάβες, το οδόντωμα εμφανίζεται σε άμεση συνέχεια με την κύστη, αποτελώντας δύο ανεξάρτητες αλλοιώσεις<sup>1,7,9</sup>. Ο παθογενετικός μηχανισμός της ενασβεστωμένης οδοντογενούς κύστης με συνύπαρξη οδοντώματος, αν και δεν είναι απόλυτα βέβαιος, πιστεύεται ότι οφείλεται είτε σε τυχαία παράθεση (juxtaposition) κύστης και οδοντώματος είτε ότι σε δευτερογενή ανάπτυξη της από το οδοντογενές επιθήλιο του οδοντώματος, χωρίς βέβαια, να αποκλείεται και το αντίθετο<sup>7</sup>.

Η κυστική αυτή αλλοίωση πρέπει να διαφοροδιαγιγνώσκεται από άλλες κυστικές βλάβες ή όγκους, οδοντογενούς και μη προέλευσης, καθώς τα ακτινολογικά και κλινικά της χαρακτηριστικά δεν είναι παθολογικά γι' αυτή. Η ύπαρξη των διάσπαρτων ακτινοσκιερών εστιών στο εσωτερικό της κύστης είναι ένα στοιχείο που συνηγορεί υπέρ της διάγνωσης ενασβεστωμένης οδοντογενούς κύστης. Άλλες παθολογικές οντότητες από τις οποίες πρέπει να διαφοροδιαγιγνώσκεται η κυστική αυτή βλάβη είναι ο αδενωματοειδής οδοντογενής όγκος, το αδαμαντινοβλαστικό ινοδόντωμα, ο ενασβεστούμενος επιθηλιακός οδοντογενής όγκος του

Pindborg και το νεανικό οστεοποιούμενο ίνωμα<sup>29-31</sup>. Επίσης, διαφοροδιάγνωση των ενασβεστωμένων οδοντογενών κύστεων που βρίσκονται στα αρχικά τους στάδια απαιτείται από άλλες κυστικές βλάβες των γνάθων, όπως οδοντοφόρες κύστεις, κερατινοκύστεις, γναθοσφαιροειδείς και τις ανευρυσματικές οστικές κύστεις<sup>1,3,9,10,11,26,28</sup>.

Στη δική μας περίπτωση, η κύστη εντοπιζόταν ενδοστικά και είχε προκαλέσει διάβρωση του προστομαϊκού οστικού πετάλου, με αποτέλεσμα την προβολή της διόγκωσης προστομαϊκά στην περιοχή των προσπεφυκώτων ούλων. Η ύπαρξη ζωτικότητας των δοντιών που σχετίζονταν με την αλλοίωση απομάκρυνε τη διάγνωση της φλεγμονώδους αιτιολογίας της. Η παρακέντηση της βλάβης επιβεβαίωσε τον κυστικό χαρακτήρα της, ενώ από τον ακτινογραφικό έλεγχο που πραγματοποιήθηκε, εκτός από την ύπαρξη της οστεολυτικής περιοχής δε διαπιστώθηκε η ύπαρξη περιοχών ενασβεστίωσης μέσα στην οστεολυτική περιοχή. Έτσι, η αρχική μας διάγνωση δεν κατευθύνθηκε προς την ενασβεστωμένη οδοντογενή κύστη, αλλά προς κάποια άλλη αναπτυξιακή οδοντογενή κυστική αλλοίωση. Η ακριβής διάγνωση τέθηκε μόνο μετά από την ιστολογική εξέταση της βλάβης, χωρίς ωστόσο ο παράγων αυτός να επηρεάσει την πρόγνωση της. Πράγματι, η εκπαρηκτική της κύστης ήταν επαρκής θεραπευτική μέθοδος για την αντιμετώπισή της και, όπως αποδείχθηκε μετά από τριετή παρακολούθηση της ασθενούς, δε διαπιστώθηκε η ύπαρξη υποτροπής.

## Βιβλιογραφία

1. Buchner A. The central calcifying odontogenic cyst: An analysis of 215 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1991; 49: 330-9.
2. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M: Calcifying odontogenic cyst. In Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M, eds. *Histological typing of odontogenic tumours*, 2nd edn. WHO international histological classification of tumours. Berlin, Springer Verlag 1992; 20-1.
3. Orsini G, Fioroni M, Rubini C, Piattelli A. Peripheral calcifying odontogenic cyst. *J Clin Periodont* 2002; 29:83-6.
4. Kamijo R, Miyaoka K, Tachikawa T, Nagumo M. Odontogenic ghost cell carcinoma: Report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1999; 57: 1266-70.
5. Lu Y, Mock D, Takata T, Jordan RCK. Odontogenic ghost cell carcinoma: report of four new cases and review of the literature. *J Oral Pathol Med*. 1999; 28: 323-9.
6. Moleri AB, Moreira LC, Carvalho JJ. Comparative morphology of 7 new cases of calcifying odontogenic cysts. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60:689-96.
7. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma. *J Oral Maxillofac Surg* 1994; 52: 555-8.
8. Buchner A, Merrell PW, Hansen LS, Leider AS. Peripheral calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72:65-70.

9. Hong SP, Ellis GL, Hartman S. Calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991; 72:56-64.
10. Sikes JW, Ghali GE, Troulis M. Expansile intraosseous lesion of the maxilla. *J Oral Maxillofac Surg* 2000; 58: 1395-400.
11. Johnson A, Fletcher M, Gold L, Chen SY. Calcifying odontogenic cyst: A clinicopathologic study of 57 cases with immunohistochemical evaluation for cytokeratin. *J Oral Maxillofac Surg* 1997; 55: 679-83.
12. Mascres C, Donohue W, Vouclair R. The calcifying odontogenic cyst: Report of a case. *J Oral Maxillofac. Surg.* 1990; 48: 319-22.
13. El-Beialy R, El-Mofty S, Refai H: Calcifying odontogenic cyst: Case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg.* 1990; 48:637-40.
14. Shamaskin R, Svirsky J, Kaugars G. Intraosseous and extraosseous calcifying odontogenic cyst (Gorlin cyst). *J Oral Maxillofac. Surg.* 1989; 47:562-5.
15. Yoshida M, Kumamoto H, Ooya K, Mayanagi. Histopathological analysis of calcifying odontogenic cysts. *J Oral Pathol Med.* 2001; 30:582- 8.
16. Kim J, Lee EH, Yook JI, Han JY, Yoon JH, Ellis G. Odontogenic ghost cell carcinoma: A case report with reference to the relation between apoptosis and ghost cells. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2000; 90:630-5.
17. Freedman PD, Lumerman H, Gee JK. Calcifying odontogenic cyst. A review and analysis of seventy cases. *Oral Surg. Oral Med Oral Pathol.* 1975; 40: 93-106.
18. Satomura K, Nakanishi, Fujisawa K, Hayashi E, Nagayama M. Initiation of ectopic epithelial calcification in a calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med* 1999; 28:330-5.
19. Keszler A, Guglielmotti MB. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma. *J Oral Maxillofac. Surg.* 1987; 45: 457-9.
20. Toida M, Ishimaru, Tatematsu N. Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma: report of a case. *J Oral Maxillofac. Surg.* 1990; 48:77-81.
21. Uchida T, Tanabe T, Fukae M. Immunocytochemical localization of amelogenin in the deciduous tooth germs of the human fetus. *Arch Histol. Cytol.* 1989;52:543-52.
22. Saku T, Okabe H, Shimokawa H. Immunohistochemical demonstration of enamel proteins in odontogenic tumors. *J Oral Med.* 1992; 21:113-9.
23. Kumamoto H. Detection of apoptosis-related factors and apoptotic cells in ameloblastomas: analysis by immunohistochemistry and an in situ DNA nick end- labeling method. *J Oral Pathol Med.* 1997; 26:419-25.
24. Piattelli A, Fioroni M, Di Alberti L, Rubini C. Immunohistochemical analysis of a dentinogenic ghost cell tumour. *Oral Oncol* 1998; 34:502-7.
25. Pretorius F, Hjorting-Hansen E, Gorlin RJ, Vickers RA. Calcifying odontogenic cyst: Range, variations and neoplastic potential. *Acta Odontol, Scand.* 1981; 36:227-40.
26. Αντωνιάδης Κ, Αντωνιάδης Δ. Ενασβεστωμένη οδοντογενής κύστη ή κύστη του Gorlin. Στο: Κύστεις των γνάθων. 2003; Κεφ. 6 :85-94.
27. Sciubba J. Aggressive epithelial odontogenic ghost cell tumor. *Oral Surg, Oral Med, Oral Pathol.* 1986; 61:471-8.
28. Tajima YT, Yokose S, Sakamoto E, Yamamoto Y, Utsumi N. Ameloblastoma arising in calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1992; 74:776-9.
29. Steinberg M, Herrera A, Frontera Y. Mixed radiographic lesion in the anterior maxilla in a 6 year old boy. *J Oral Maxillofac Surg.* 200; 59:317-21.
30. Ζουλούμης Λ, Θωμαΐδης Β, Λαζαρίδης Ν, Καρύκη Ε, Καρακάσης Δ. Οστεϊνο-οστεοποιούμενο ίνωμα της κάτω γνάθου. *Στόμα* 1998; 26:91-6.
31. Ζουλούμης Λ, Τσάμης Ι, Τηλαβερίδης Ι, Καρακάσης Δ, Λαζαρίδης Ν. Ενασβεστωμένος επιθηλιακός οδοντογενής όγκος με περιφερική εντόπιση. Όγκος του Pindborg. Παρουσίαση περιπτώσεων. *Ελληνικό Περιοδικό για Στοματική και Γναθοπροσωπική Χειρουργική* 2001; 16:89-95.