گزارش مورد

مجلهٔ دانشگاه علوم پزشکی بابل
دوره هفدهم، شماره ۲، بهمن ۱۳۹۳، صفحه ۶۱-۵۷

گزارش یک مورد کیست ادنتوژنیک کلسیفیه شونده به همراه ادنتوم کمپلکس

آتنا شیوا (DDS)[۱]، کامران نصرتی (DDS)[۲*]

۱- گروه آسیب شناسی دهان، فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مازندران
۲- گروه جراحی دهان، فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی بابل

دریافت: ۹۳/۵/۲۵ ، اصلاح:۹۳/۷/۲ ، پذیرش:۹۳/۹/۵

خلاصه

سابقه و هدف: کیست ادنتوژنیک کلسیفیه یک کیست ادنتوژنیک تکاملی ناشایع است. این کیست تنها ۱٪ کیستهای فکی را شامل می شود و به صورت ناشایعی همراه با ادنتوم دیده می شود. در این گزارش یک مورد کیست ادنتوژنیک کلسیفیه شونده به همراه ادنتوم کمپلکس گزارش می شود.

گزارش مورد: بیمار دختری ۱۲ ساله بود که با شکایت از تورم بدون درد در ناحیه پره مولر اول نهفته سمت چپ فک پایین مراجعه کرد. در بررسی رادیوگرافی، ضایعه رادیولوسنت با نواحی رادیواپک دیده شد. ضایعه به طریق انوکلاسیون به همراه دندان نهفتهتوسط جراح خارج شد. در نمای پاتولوژی اپی تلیوم کیست ادنتوژنیک با سلول های گوست و ساختار ادنتوم کمپلکس مشاهده شد. درمان به روش انوکلئاسیون انجام شد و در پیگیری ۱ساله بیمار، عودی مشاهده نشد.

نتیجه گیری: نمای بالینی و رادیوگرافیک ضایعات ادنتوژنیک، اختصاصی نمی باشد. همواره بایستی به این نکته توجه نمود که نوع ضایعه همراه با کیست گورلین با سیربالینی، روش درمان و پیش آگهی ضایعه ترکیبی را تعیین می کند.

کلید واژه ها: کیست ادنتوژنیک کلسیفیه، سلول گوست، کیست گورلین، ادنتوم کمپلکس.

مقدمه

کیست ادنتوژنیک کلسیفیه شونده (Calcifying Odontogenic Cyst) اولین بار توسط گورلین و همکارانش در سال ۱۹۶۲ و همچنین Gold در سال ۱۹۶۳ توضیح داده شد (۱). این کیست ضایعه ادنتوژنیک ناشایعی است که حدود ۳٪ از ضایعات بیوپسی شده دهان و ۱٪ از کیستهای فکین را شامل می شود(۲). اگر چه این ضایعه را عمدتاً کیست محسوب می کنند اما برخی پژوهشگران و حتی سازمان بهداشت جهانی (WHO) در سال ۱۹۹۲، این ضایعه را با همه گوناگونی های آن به عنوان یک نئوپلاسم طبقه بندی می‌کند که برخی خوش خیم و برخی دیگر ممکن است انفیلتراتیو و یا بدخیم نیز باشند (۳). به علاوه انواع کیستیک این ضایعه ممکن است با دیگر تومورهای ادنتوژنیک همانند ادنتوم، آملوبلاستوما، آدنوماتوئید ادنتوژنیک تومور، آملوبلاستیک فیبروما و آملوبلاستیک فیبرو ادنتوم هم دیده شود(۴). در مطالعه ای که Mosqueda-Taylor روی ۳۴۹ مورد از تومورهای ادنتوژنیک در مکزیک انجام دادند، تنها ۶/۸٪ از موارد مربوط به کیست ادنتوژنیک کلسیفیه بود(۵). همچنین Knezevic و Buchner در مطالعات خود شیوع همراهی کیست گورلین با ادنتوما را به ترتیب ۲۰ و ۳۵٪ گزارش نمودند (۶و۷). کیست ادنتوژنیک کلسیفیه عمدتاً یک ضایعه داخل استخوانی است که با شیوع مساوی در فک بالا و پایین بروز پیدا می کند. در حدود ۶۵ درصد موارد در ناحیه دندان‌های انسیزور و کانین یافت می شود که در ۳۲-۱۰٪ همراه با دندان‌های نهفته دیده می شود که اغلب کانین است (۸). در بررسی که Seyed Majidi و همکاران بر روی ۲۱ مورد از کیستهای ادنتوژنیک کلسیفیه انجام دادند، اکثرا در خلف فک پایین، جنس مونث و دهه دوم مشاهده شد و ۱۰۰٪ موارد نمای کیستیک داشتند (۹). کیست ادنتوژنیک کلسیفیه غالبا در دهه‌های دوم و سوم زندگی مشاهده می شود اما اشکال نئوپلازیک آن در بیماران مسن تر رخ می‌دهد. انواعی که با ادنتوم همراه هستند از شیوع کمتری برخوردارند و در بیماران جوان تر با میانگین سنی ۱۷ سال بروز می کند. از نظر بالینی همراهی کیست ادنتوژنیک کلسیفیه با ادنتوما اغلب به صورت تورم بدون درد و با رشد آهسته است (۸) و گاهی اوقات بدون تورم بوده و فقط تاخیر در رویش دندان به چشم می‌خورد و در برخی از موارد نیز ممکن است به عنوان یک یافته تصادفی در حین رادیوگرافی معمول مشاهده شود (۱۰). تظاهر بالینی و رادیوگرافی کیست ادنتوژیک کلسیفیه همراه با تومورهای ادنتوژنیک اختصاصی نمی باشد لذا بررسی هیستوپاتولوژیک جهت تشخیص الزامی است (۱۱). از نظر نمای هیستوپاتولوژیک، کیست گورلین دارای اپی تلیوم سیستیک متشکل از لایه بازال مکعبی تا استوانه‌ای با هسته هایپرکروم و قطبیت معکوس بوده که در لایه های سطحی سلول‌های شبحی ائوزینوفیلیک، بدون هسته با حدود سلولی مشخص به چشم می‌خورد. بافت همبندی آن نیز معمولا فیبرو واسکولار است. سلول‌های شبحی (Ghost cell keratinization) از مشخص ترین نمای میکروسکوپیک این ضایعه می باشد. در برخی موارد ممکن است، ساختارهای رادیواپک به صورت کلسیفیکاسیون نامنظم یا توده های شبه دندانی در داخل ضایعه دیده شود که مشابه ادنتوم کمپلکس یا کامپاند است

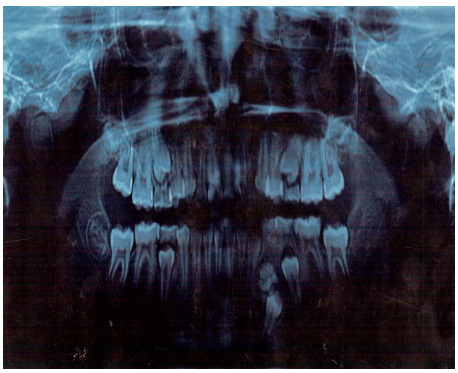
* مسئول مقاله: دکتر آتنا شیوا
آدرس: ساری، بلوار خزر، دانشگاه علوم پزشکی مازندران، دانشکده دندانپزشکی. تلفن:۰۱۱-۳۳۲۴۴۸۹۴
E-mail:atenashiva@yahoo.com

[DOR: 20.1001.1.15614107.1393.17.2.8.3]
[DOI: 10.22088/jbums.17.2.57]

(۱۲و۸). از آنجا که اهمیت بالینی، رادیوگرافی، پاتولوژیکی، پاتوژنز و درمان کیست ادنتوژنیک کلسیفیه همراه با ادنتوم کمپلکس تا به امروز شناخته نشده و همراهی دو ضایعه در کنار یکدیگر ناشایع است، بنابراین بر آن شدیم که این مورد را گزارش کرده و ویژگیهای آن را با سایر مطالعات گزارش شده دیگر مورد بررسی و مقایسه قرار دهیم.

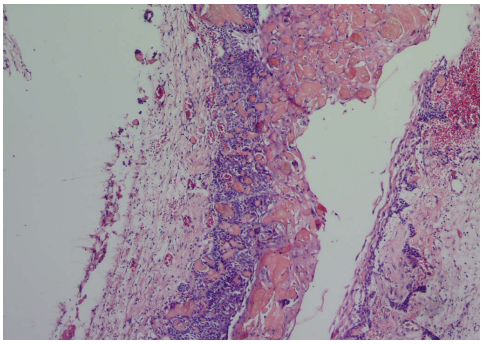
گزارش مورد

بیمار یک دختر ۱۲ ساله است که به دلیل تورم بدون درد در داخل استخوان که در سمت چپ فک تحتانی در ناحیه دندان پره مولر اول نهفته بود به جراح فک و صورت در ساری مراجعه نمود. به گفته بیمار این تورم تقریبا از ۲ تا ۳ ماه پیش ایجاد شده بود. در معاینه داخل دهانی ضایعه به صورت یک تورم در کورتکس باکال با قوام سفت در سمت چپ فک تحتانی به اندازه ۱/۵×۲ cm در ناحیه دندان پره مولر اول مشاهده گردید. سطح مخاط روی آن سالم بود. در تاریخچه پزشکی بیمار مصرف داروی خاص یا بیماری گزارش نشده بود. در عکس پانورامیک بیمار یک رادیو لوسنسی یونی لاکولار با حدود مشخص در ناحیه دندان پره مولر اول نهفته به همراه توده های رادیواپک درون آن مشاهده شد. با توجه به نمای رادیوگرافی تشخیصهای افتراقی ادنتوما و آملوبلاستیک فیبرو ادنتوم مطرح گردید. (شکل ۱)

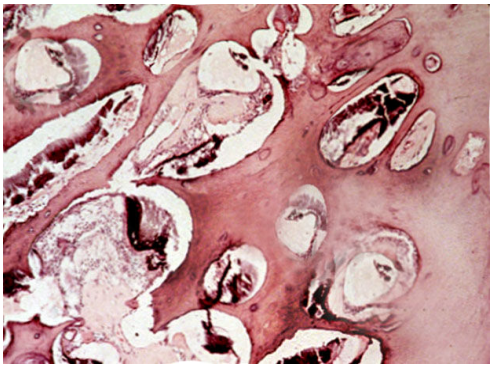


شکل۱. نمای رادیوگرافی ضایعه رادیولوسنت تک حجره ای با چند کانون اپک دردر پره مولر اول نهفته، سمت چپ مندیبل

ضایعه به طریق انوکلاسیون به همراه دندان نهفته توسط جراح خارج شد و در فرمالین ۱۰٪ به آزمایشگاه آسیب شناسی دهان و فک ارسال شد. در بررسی نمای ماکروسکوپی، ضایعه از دو قسمت بافت نرم و سخت تشکیل شده بود که در دو قسمت جداگانه پاس داده شد. بافت نرم به رنگ کرم تا قهوه ای و به ابعاد ۱/۱×۰/۹×۰/۸ سانتی متر بود اما بافت سخت متشکل از چند قطعه بافت با قوام سخت و جمعاً به ابعاد ۰/۵×۰/۶×۰/۶ سانتی متر بود که جهت دکلسیفیکاسیون به مدت ۲ روز در اسید فرمیک ۱۰٪ گذاشته و سپس برش زده شد. در بررسی هیستوپاتولوژیک ضایعه با رنگ آمیزی هماتوکسیلین–ائوزین، اپی تلیوم ادنتوژنیک مطبق بافت کیستیک با لایه بازال مکعبی تا استوانه ای و هسته هایپرکروم با قطبیت معکوس به همراه سلولهای شبحی سطحی (Ghost cell) مشاهده شد. بافت همبندی کیست فیبرووواسکولار و حاوی سلولهای آماسی مزمن پراکنده بود (شکل۲). همچنین ساختارهای کلسیفیه نامنظم از مینا، توبولهای عاجی و بافت همبندی مرتبط با ادنتوم کمپلکس نیز مشاهده گردید (شکل۳). در نهایت ضایعه مورد نظر، کیست ادنتوژنیک کلسیفیه شونده (گورلین) به همراه ادنتوم کمپلکس (COCaO) شناخته شد. در پیگیری ۱ ساله بعد از جراحی بیمار، عودی مشاهده نگردید.



شکل ۲. رنگ آمیزی هماتوکسیلین–ائوزین درکیست گورلین. پوشش اپیتلیوم کیست گورلین و سلولهای گوست درون آن با درشتنمایی x۱۰



شکل ۳. رنگ آمیزی هماتوکسیلین–ائوزین در کیست گورلین. ادنتوم کمپلکس همراه آن با درشتنمایی x ۴۰

بحث و نتیجه گیری

مهم ترین مساله در مورد کیست ادنتوژنیک کلسیفیه (گورلین) بالاخص اگر با ادنتوم همراه باشد این است که ضایعه ادنتوژنیک ناشایعی بوده که تظاهر هیستوپاتولوژیک و مشی بالینی متغیر قابل توجهی دارد (۱۳). بعضی از کیست‌های ادنتوژنیک کلسیفیه، سیست‌های غیر نئوپلاژیک به نظر می‌آیند، در حالی که برخی از آن‌ها به عنوان تومور سلول شبحی ادنتوژنیک اپی تلیالی نامیده می شوند، مشخصات سیستیک ندارند و ممکن است انفیلتراتیو و یا حتی بدخیم باشند و به عنوان نئوپلاسم قلمداد شوند (۸). در سال ۱۹۸۱ Praetorius و همکارانش سعی بر طبقه بندی کیست گورلین نمودند و آنرا به صورت کیستونئوپلاسم طبقه بندی کردند و سه گروه زیر را بیان نمودند ۱– نوع ساده تک کیستی مشخص گورلین با یا بدون ذرات کلسیفیه؛ ۲–نوع تک کیستی شبیه ادنتوما به همراه تمام مشخصات نوع ۱ با این تفاوت که بافت کلسیفیه مشابه ادنتوماست؛ ۳–نوع تک کیستی آملوبلاستوماتو زپرولیفراتیو که به وسیله رشد اپیتلیوم آملوبلاستوماتوز در

[DOR: 20.1001.1.15614107.1393.17.2.8.3]
[DOI: 10.22088/jbums.17.2.57]

دیواره کیست و داخل لومن مشخص می شود و به عنوان تومور ادنتوژنیک طبقه بندی می شود (۱۴). شیوع این کیست در دهه دوم، سوم و در افراد کمتر از ۴۰ سال گزارش شده است به علاوه اگر این کیست با تومورهای ادنتوژنیک شناخته شده ادنتوم همراه باشد در بیماران جوان تر با میانگین ۱۷ سال دیده می شود (۶). Hirshberg و همکاران ۵۲ مورد کیست گورلین مرتبط با ادنتوم را از نظر بالینی و هیستولوژیکی مورد بررسی قرار دادند و شیوع این ضایعات ترکیبی را بیشتر در فک بالا، خانم‌ها و در سن ۱۶ سالگی گزارش کردند (۱۵) که مشابه با مورد ما که ۱۲ ساله بوده است، می باشد. همچنین Nevile و همکاران بیان کردند که این واریانت ترکیبی اغلب به صورت تک کیستی بوده و شیوع ادنتوم کامپاند همراه با این کیست بیشتر از نوع کمپلکس است (۸) که در توافق با این مورد گزارش شده نیست. Seyed Majidi و همکارانش در سال ۲۰۱۰ همراهی کیست گورلین را با ادنتوم در پسر ۱۵ ساله گزارش نمودند که شکایت اصلی بیمار از تورم بدون درد در فک بالا بود، که از نظر سن با مورد ما همخوانی دارد (۲). در مطالعه Li و همکاران بیان شد که همراهی این دو ضایعه در دهه دوم زندگی است که مشابه مورد حاضر می باشد (۱۶). در مطالعه ما به نظر می رسد از نظر پاتولوژی، ادنتوما خارج از کیست گورلین بود که به نوعی در توافق با مطالعه Seifi و همکاران است (۱۷). همچنین Gallana-Alverz و همکاران در آقای ۱۹ ساله همراهی کیست گورلین با ادنتوما را گزارش کردند که در نمای رادیوگرافی رادیولوسنسی تک حفره ای در ناحیه کانین دیده شد که توده های رادیواپک در اطراف آن مشاهده می شد (۱۰). Pisota و همکاران در آقای ۳۶ ساله گزارشی از این ضایعات ترکیبی مطرح کردند که شکایت اصلی بیمار از تورم بدون درد در ناحیه پره مولر پایین و وجود کانین شیری در ناحیه بود (۱۸). در مورد پاتوژنز کیست گورلین با ادنتوم کمپلکس این احتمال وجود دارد که اپی تلیوم کیست گورلین پرولیفراتیو بوده (۱۹) و از اثر القایی اپی تلیوم روی بافت همبند، ادنتوم به صورت ثانویه تشکیل می شود. یک احتمال دیگر این است این دو ضایعه با هم در یک محل پدید می آیند، زیرا تومورهای ادنتوژنیک دیگر نظیر آملوبلاستوما هم با کیست گورلین گزارش شده است (۲). تومور کیستیک ادنتوژنیک کلسیفیه شونده (کیست گورلین) ضایعه ای ادنتوژنیک و تکاملی است که امکان عود آن وجود دارد (۱۰). به هر حال در این مورد درمان با انوکلاسیون و خروج دندان درگیر انجام شد، اما در صورتی که کیست با سایر ضایعات تومورال که دارای مشی تهاجمی هستند درمان نیز می بایستی تهاجمی تر صورت پذیرد (۲۰). پیش آگهی کیست کلسیفیه ادنتوژنیک ترکیبی به تومور همراه آن مرتبط است و بررسی هیستوپاتولوژیک تمام ضایعات خارج شده از دهان الزامی است. در نهایت باید به این نکته توجه نمود که نوع ضایعه ای که همراه با کیست گورلین می باشد، سیر بالینی، روش درمان و نهایتا پیش آگهی ضایعات ترکیبی را تعیین می کند و بررسی هیستوپاتولوژیک دقیق و تشخیص قطعی نهایی می‌تواند منجر به درمان صحیح شود.

تقدیر و تشکر

بدینوسیله از پرسنل آزمایشگاه نور که در آماده سازی لام ما را یاری نمودند تشکر و قدردانی می گردد.

[DOR: 20.1001.1.15614107.1393.17.2.8.3]
[DOI: 10.22088/jbums.17.2.57]

A Calcifying Odontogenic Cyst Associated with Complex Odontoma: A Case Report

A. Shiva (DDS)[1], K. Nosrati (DDS)[*2]

1. Department of Pathology, Oral and Maxillofacial Pathology, Faculty of Dentistry, Mazandaran University of Medical Sciences, Sari, I.R. Iran.
2. Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Dentistry, Babol University of Medical Sciences, Babol, I.R. Iran.

J Babol Univ Med Sci; 17(2); Feb 2015; PP:57-61

Received: Apr 26th 2014, Revised: Sep 24th 2014, Accepted: Nov 26th 2014.

ABSTRACT

BACKGROUND AND OBJECTIVE: Calcifying odontogenic cyst is an uncommon developmental cyst. It accounts for only 1% of jaw cysts and uncommonly occurs with odontoma. Herein, we report a case of calcifying odontogenic cyst, associated with complex odontoma.

CASE REPORT: The patient was a 12-year-old girl with complaints of painless swelling in the mandibular first premolar. In radiographic examination, a radiolucent-radiopaque lesion was reported. The lesion, as well as the impacted tooth, was surgically removed via enucleation. In pathological analysis, an odontogenic cyst with ghost cells and complex odontoma was observed. Enucleation was performed for treatment and no recurrence was reported during the one-year follow-up.

CONCLUSION: Clinical and radiographic findings of odontogenic lesions are not exclusive. Therefore, more attention should be paid to the fact that the type of lesion associated with Gorlin cyst determines the clinical course, treatment, and prognosis of complex lesions.

KEY WORDS: *Calcifying Odontogenic Cyst, Ghost Cells, Gorlin Cyst, Complex Odontoma.*

Please cite this article as follows:

Shiva A, Nosrati K. A Calcifying Odontogenic Cyst Associated with Complex Odontoma: A Case Report. J Babol Univ Med Sci. 2015; 17(2): 57-61.

[*] **Corresponding Author; A. Shiva (DDS)**
Address: Faculty of Dentistry, Mazandaran University of Medical Sciences, Khazar Boulevard, Sari, I.R.Iran .
Tel: +98 11 33244894
E-mail: atenashiva@yahoo.com

[DOR: 20.1001.1.15614107.1393.17.2.8.3]
[DOI: 10.22088/jbums.17.2.57]

References

1. Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP, Vickers RA. The calcifying odontogenic cyst-A possibleanalogue of the cutaneous calcifying epitheliomaofmalherbe. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1962;15(10):1235-43.

2. Seyedmajidi M, Foroughi R. Calcifying odontogenic cyst associated with complex odontoma-A case report. J Res Dent Sci. 2011;8(1):47-52. [In Persian]

3. Lucchese A, Petruzzi M, Scivetti M, Pilolli GP, Di Bisceglie MB, Crincoli V, et al. Calcifying odontogenic cysts associated with odontomas: confocal laser scanning microscopy analysis of 13 cases. Ultrastruct Pathol. 2011;35(3):146-50.

4. GneppDR. Diagnostic surgical pathology of the head and neck, 2nd ed: Chapter 4-Lesions of the Oral Cavity. Philadelphia: Elsevier Inc., 2009. p.221-3.

5. Mosqueda-Taylor A, Ledesma-Montes C, Caballero-Sandoval S, Portilla-Robertson J, Ruíz-GodoyRivera LM, Meneses-García A. Odontogenic tumors in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 1997;84(6):672-5.

6. Knezevic G, Sokler K, Kobler P, ManojlovicS. Calcifyingodontogenic cyst-Gorlin's cyst-Report of two cases. Coll Antropol. 2004;28(1):357-62.

7. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM, Leider AS. Central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst. Int J Oral Maxillofac Surg. 1990;19(5):260-2.

8. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot J. Oral and Maxillofacial pathology, 3rd ed. Philadelphia: WB.Saunders; 2009.p.697.

9. Seyedmajidi M, Bizhani A. Clinicopathologic Analysis of 21 Cases of Calcifying Odontogenic Cyst. J Res Dent Sci. 2011;8(3):156-62. [In Persian]

10. Gallana-Alvarez S, Mayorga-Jimenez F, Torres-Gómez FJ, Avellá-Vecino FJ, Salazar-Fernandez C. Calcifying odontogenic cyst associated with complex odontoma: case report and review of the literature. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2005;10(3):243-7.

11. Knezević G, Sokler K, Kobler P, Manojlović S. Calcifying odontogenic cyst-Gorlin's cyst--report of two cases. Coll Antropol. 2004;28(1):357-62.

12. Mohtasham N, Rahpeyma A, Khajeahmadi S, Merati M. Calcifying odontogenic cyst with complex odontoma: Histological and Immunohistochemical Features. J Dent Master Tech. 2012;1(1):35-9.

13. Basile JR, Klene C, Lin YL. Calcifying Odontogenic Cyst With Odontogenic Keratocyst: A Case Report And Review of The Literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2010;109(4):e40-5.

14. Praetorius F, Hjorting-Hansen E, Gorlin RJ, Vickers RA. Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. Acta Odontol Scand. 1981;39(4):227-40.

15. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: apossible separate entity (odontocalcifying odontogenic cyst). J Oral Maxillofac Surg. 1994;52(6):555-8.

16. Li TJ,Yu SF. Clinicopathologic spectrum of the So-called Calcifying Odontogenic Cyst:A Study of 21 Intraosseous Cases with reconsideration of the Terminology and Classification. Am J Surg Pathol.2003 Mar;27(3):372-384.

17. Seifi S, Nosrati K. Calcifying Odontogenic Cyst Associated with Complex Odontoma-An Uncommon Case. Daneshvar Med. 2010;17(85):59-62. [In Persian]

18. Pisota GD, Gerlach RF, dos Santos JC, Montebelo Filho A. Odontoma- producing intraosseous calcifying odontogenic cyst: case Report. Braz Dent J. 2001;12(1):67-70.

19. Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. World Health Organization: Histological typing of odontogenic tumors, 2ND .Berlin:Springer-Verlag;1992:7-9,20-21,66-68.

20. Ide F, Obara K, Mishima K, Saito I. Ameloblastoma ex calcifying odontogenic cyst (dentinogenic ghost cell tumor). J Oral Pathol Med. 2005;34(8):511-2.

[DOR: 20.1001.1.15614107.1393.17.2.8.3]
[DOI: 10.22088/jbums.17.2.57]