

## ادنتوزنیک کراتوسیست همراه با تورم در بیمار مسن - گزارش مورد

صفورا سیفی<sup>۱\*</sup>، مرجان کیانی<sup>۲</sup>، احسان موعودی<sup>۳</sup>، علیرضا پورنبی<sup>۴</sup>

### چکیده

**زمینه و هدف:** تومور ادنتوزنیک کراتوسیست معمولاً بدون علامت بوده و در موارد نادر ی ممکن است در افراد مسن ایجاد شود. هدف گزارش مورد ارزیابی بالینی - رادیوگرافی - پاتولوژی و درمان و پیگیری بیمار خانم ۶۹ ساله مبتلا می‌باشد.

**معرفی بیمار:** بیمار خانم بی دندان ۶۹ ساله بوده که به دلیل شکایت از تورم بدون درد که از حدود ۳ ماه پیش ایجاد شده، به جراح مراجعه کرد. در رادیوگرافی پانورامیک رادیولوسنسی چند حفره ای با حدود نامشخص نمایان بود. در بررسی میکروسکوپی تومور ادنتوزنیک کراتوسیست التهابی گزارش شد. درمان با استکتومی محیطی و خروج کامل ضایعه صورت گرفت. در عرض ۱۴ ماه پیگیری بیمار هیچ عودی مشاهده نشد.

**نتیجه‌گیری:** تومور ادنتوزنیک کراتوسیست بدلیل تنوع علایم بالینی، رادیوگرافی باید در تشخیص افتراقی ضایعات داخل استخوانی در افراد مسن مورد توجه قرار گیرد. در افراد پیر به دلیل ناتوانی فیزیکی، انتخاب روش درمانی مناسب و پیگیری طولانی مدت بیمار بعد از جراحی ضروری به نظر می‌رسد.

**واژگان کلیدی:** ادنتوزنیک کراتوسیست، فک پایین، بیمار مسن.

۱-دانشیار گروه آسیب شناسی دهان و فک و صورت.

۲-دستیار گروه آسیب‌شناسی دهان و فک و صورت.

۳-دانشیار گروه رادیولوژی دهان و فک و صورت.

۴-استادیار گروه جراحی دهان و فک و صورت.

۱- گروه آسیب شناسی دهان و فک و صورت، مرکز تحقیقات سلامت و بهداشت دهان، پژوهشکده سلامت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی بابل، بابل، ایران.

۲- گروه آسیب‌شناسی دهان و فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی بابل، بابل، ایران.

۳- گروه رادیولوژی دهان و فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی بابل، بابل، ایران.

۴- گروه جراحی دهان و فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی بابل، بابل، ایران.

\*نویسنده مسؤول:

صفورا سیفی؛ گروه آسیب شناسی دهان و فک و صورت، مرکز تحقیقات سلامت و بهداشت دهان، پژوهشکده سلامت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی بابل، بابل، ایران.

تلفن: ۰۰۹۸۱۱۹۲۲۹۱۴۰۸

Email: sf\_seify@yahoo.com

## مقدمه

تومور ادنتوژنیک کراتوسیست یک نئوپلاسم خوش خیم ادنتوژنیک بوده و طبق تعریف WHO توموری یونی یا مالتی سیستیک، داخل استخوانی، مفروش با اپیتلیوم مطبق سنگفرشی پاراکراتینیزه و رفتار تهاجمی و میزان عود بالا است (۱). اگرچه انجمن بین المللی پاتولوژیست های دهان هنوز معتقدند که باید واژه ادنتوژنیک کراتوسیست حفظ شود تا زمانیکه بررسی های مولکولی کامل بر روی اپی تیوم این ضایعه صورت گیرد (۲). این تومور اکثرا در خلف تنه و راموس فک پایین رخ می دهد (۳). ابتلا به تومور ادنتوژنیک کراتوسیست معمولا در دهه دوم و سوم زندگی بوده ولی در موارد نادر ممکن است در افراد پیر رخ دهد (۴) و در مردان نسبت به زنان شیوع بالاتری دارد (۵). این ضایعه اغلب بدون علامت بوده و در مواردی که ملتهب یا عفونی گردد ممکن است با درد و تورم و تریسموس همراه باشد. در نمای رادیوگرافی به صورت یک ضایعه رادیولوسنت تک حفره ای یا چند حفره ای با حدود مشخص و مارجین های scalloped مشاهده می شود (۶). در نمای هیستوپاتولوژی تومور ادنتوژنیک کراتوسیست معمولا مفروش با اپیتلیوم پاراکراتینیزه موج می باشد (۷). در مواردی که تومور ادنتوژنیک کراتوسیست ساینز بزرگی دارد مارسویپالیازسیون یا decompression با subsequent enucleation جهت کاهش ساینز تومور و حفظ ساختارهای مجاور انجام می شود (۸). در مرور مقالات، یک مورد تومور ادنتوژنیک کراتوسیست در فک بالای بیمار ۹۲ ساله گزارش شده است (۹).

هدف گزارش مورد اخیر بررسی بالینی - رادیوگرافی - پاتولوژی و درمان و پیگیری بیمار خانم ۶۹ ساله مبتلا به تومور ادنتوژنیک کراتوسیست می باشد.

## گزارش مورد

بیمار خانم ۶۹ ساله بی دندانانی بوده که به علت شکایت از تورم بدون درد که از حدود ۳ ماه پیش در سمت چپ فک پایین ایجاد شده بود به درمانگاه مراجعه کرد. در معاینه خارج دهانی تورمی به ابعاد ۳×۴ سانتیمتر در ناحیه راموس و بادی مندیبل مشهود بود. پوست ناحیه نرمال بوده اما در لب و چانه پاراستزی مشاهده می شد.

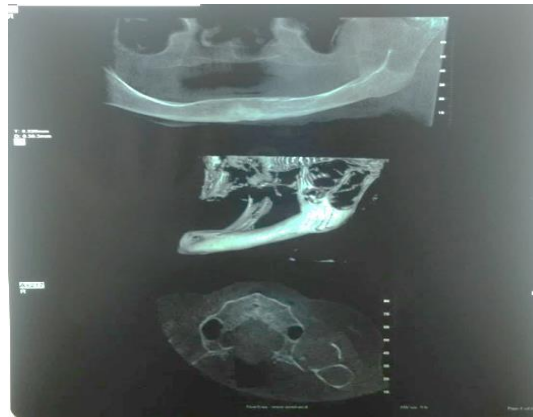
در معاینه داخل دهانی، تورمی به ابعاد ۲×۲ سانتیمتر در سمت چپ مندیبل مشاهده می شد، مخاط ناحیه نرمال بوده اما با خروج چرک همراه بود. در رادیوگرافی پانورامیک بیمار رادیولوسنسی چند حفره ای با حدود نسبتا نامشخص در راموس از انگل تا کندیل چپ نمایان بود که سبب تخریب وسیع استخوان در همان ناحیه شده بود (تصویر ۱). در نمای CBCT بیمار تخریب استخوان و expansion با حدود نامشخص به صورت رادیولوسنسی چند حفره ای مشاهده شد که از راموس تا کرونوئید ناچ سمت چپ کشیده شده بود همچنین تخریب کورتکس مدیال و کرونوئید پروسس دیده شد (تصویر ۲). تشخیص افتراقی شامل تومور ادنتوژنیک کراتوسیست، آملوبلاستوما و ژانت سل گرانولوم مرکزی بود. ابتدا بیوپسی اینسیژنال به عمل آمد. در بررسی ماکروسکوپی، یک قطعه نسج نرم به ابعاد ۱/۶×۰/۷×۰/۳ سانتی متر دیده شد که در برش دارای سطح مقطع کیستیک بود. در بررسی ریزبینی، ساختار کیست ادنتوژنیک مفروش با اپیتلیوم مطبق سنگفرشی پاراکراتوتیک و چین خورده مشاهده شد. سلول های لایه بازال هایپرکروم بوده و نمای نردبانی داشتند. در بعضی نواحی جداشدگی اپیتلیوم از بافت همبندی جدار کیست مشهود بود. بافت همبندی جدار کیست فیبروکلانزینیزه بوده و ارتشاح شدید و منتشر سلول های آماسی مزمن دیده می شد (تصویر ۳). بنابراین احتمالا ادنتوژنیک کراتوسیست التهابی مطرح شد اما تشخیص قطعی منوط به برداشت کامل ضایعه مطرح شد.

نرم کرم قهوه ای جمعا به ابعاد  $4 \times 3/5 \times 1$  سانتی متر خارج و جهت بررسی هیستوپاتولوژی مجدد ارسال گردید (تصویر ۴). که تومور ادونتوژنیک کراتوسیست ملتهب گزارش گردید (تصویر ۵). جهت درمان، استکتومی محیطی و خروج کامل ضایعه صورت گرفت و در عرض ۱۴ ماه پیگیری هیچ عودی مشاهده نشد (تصویر ۸-۶).

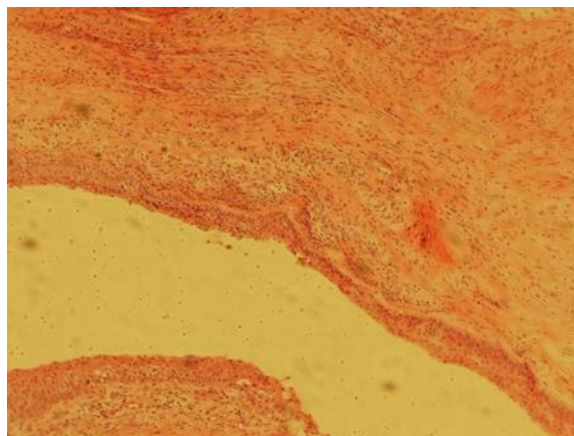
سپس بیوپسی اکسیژنال انجام شده و ضایعه به همراه استخوان درگیر شامل استخوان کندیل چپ مندیبل به طول  $1/5$  سانتی متر و ابعاد باکولینگوالی  $1/7 \times 0/7$  سانتی متر، طول کرونوئید چپ  $3/2$  سانتی متر به ابعاد باکولینگوالی  $2/5 \times 2$  سانتی متر و تنه مندیبل به ابعاد  $2/9 \times 1/5 \times 0/8$  سانتی متر همراه با نسج نرم تومورال متصل به مرکز تنه فک پایین به رنگ قهوه ای با قوام الاستیک به ابعاد  $2 \times 1/5 \times 1$  سانتی متر و چندین قطعه نسج



تصویر ۱: رادیوگرافی پانورامیک، رادیولوسنسی چند حفره ای با حدود نامشخص در راموس فک پایین از انگل تا کندیل چپ



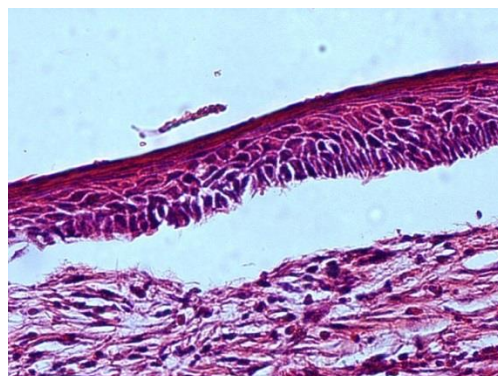
تصویر ۲: نمای CBCT بیمار، رادیولوسنسی چند حفره ای با حدود نامشخص و تخریب استخوان مشهود است



تصویر ۳: ساختار کیستیک ادنتوژنیک ، مفروش با اپیتلیوم مطبق سنگفرشی پاراکراتوتیک موج همراه با سلول های لایه بازال هایپرکروم با نمای نردبانی (رنگ آمیزی هماتوکسیلین اتوزین-10x)



تصویر ۴: نمای ماکروسکوپی ضایعه به همراه استخوان درگیر



تصویر ۵: جداشدگی اپیتلیوم از بافت همبندی جدار کیست (رنگ آمیزی هماتوکسیلین اتوزین-40x)



تصویر ۶: نمای رادیوگرافی پانورامبیک - PA SKULL و بالینی بیمار بعد از جراحی تومور ادونتوژنیک کراتوسیست



تصویر ۷: نمای رادیوگرافی پانورامبیک - PA SKULL و بالینی بیمار بعد از جراحی تومور ادونتوژنیک کراتوسیست



تصویر ۸: نمای رادیوگرافی پانورامبیک - PA SKULL و بالینی بیمار بعد از جراحی تومور ادونتوژنیک کراتوسیست

## بحث

عود بالا در کراتوسیست و از آنجا که با افزایش سن، ممکن است از کراتوسیست، تومور بدخیمی مانند کارسینوم سلول سنگفرشی منشا بگیرد، لذا انتخاب روش درمانی و پیگیری طولانی مدت آنها ضروری است.

Gurugubeli و همکاران یک مورد کارسینوم سلول سنگفرشی را در فرد مبتلا به کراتوسیست گزارش کردند (۱۶). در مجموع در بررسی موارد گزارش شده در مورد وقوع کراتوسیست در افراد پیر مطالعات معدودی مشاهده می گردد. در سال ۲۰۰۶، Suzuki و همکاران یک مورد کراتوسیست را در فک بالای فرد پیر گزارش نمودند (۷).

در سال ۲۰۱۷، caixeta و همکاران یک مورد تومور ادنتوژنیک کراتوسیست را در تنه فک پایین با پیگیری ۵ ساله و بدون عود گزارش کردند (۱۷).

علایم بالینی این ضایعه شامل درد، آبه، تورم، عفونت و خروج چرک می باشد (۵). در گزارش مورد اخیر بیمار تورم بدون دردی را از حدود ۳ ماه پیش ذکر می کند. اما در بعضی موارد می تواند بدون علامت باشد.

تومور ادنتوژنیک کراتوسیست در نمای رادیوگرافی به صورت یک ضایعه تک یا چند حفره ای با حدود مشخص و مارژین های scaloped مشاهده می شود (۶). در گزارش مورد اخیر در تشخیص افتراقی، بالینی تومور ادنتوژنیک کراتوسیست، آملوبلاستوما و ژانت سل گرانولومای مرکزی گزارش گردید.

هیستوپاتولوژی تومور ادنتوژنیک کراتوسیست اختصاصی می باشد (۷). التهاب در تومور ادنتوژنیک کراتوسیست منجر به تبدیل اپیتلیوم پاراکراتینیزه کلاسیک به اپیتلیوم غیرکراتینیزه سنگفرشی می باشد. همچنین بروز التهاب بر پتانسیل تکثیر پوشش اپیتلیالی آن اثر می گذارد (۱۸).

به نظر می رسد میزان گسترش تومور، نزدیکی به ساختارهای حیاتی، عود، مارژینهای نامشخص، سن، شرایط

ادنتوژنیک کراتوسیست اولین بار توسط philipsen در سال ۱۹۵۶ گزارش شد (۱۰). ادنتوژنیک کراتوسیست تومور خوش خیم فک بوده و اغلب در جهت قدامی خلفی و بدون پرفوره کردن استخوان گسترش می یابد (۱۱). رشد سریع تومور ادنتوژنیک کراتوسیست ممکن است به علت میزان تکثیر بالای اپی تلیوم آن باشد. kuroyanagi و همکاران مطرح کردند که ارزیابی رنگ پذیری این تومور با ki67 جهت یافتن روش درمانی مناسب، کمک کننده است (۱۲).

در ۶۵٪ موارد ادنتوژنیک کراتوسیست در فک پایین و با شیوع بیشتر در ناحیه مولر سوم رخ می دهد. در ۱۰٪ موارد این تومور در بیماران بی دندان و افراد پیر اتفاق می افتد (۱۳). در اکثر کشورهای توسعه یافته سن بالای ۶۵ سال پیری در نظر گرفته شده است (۱۴). اگرچه شیوع بیشتر کراتوسیست در دهه سوم و چهارم زندگی گزارش شده اما در گزارش مورد اخیر در خانم بی دندان ۶۹ ساله رخ داده است.

در مطالعه انجام شده توسط pechalova و همکاران در بررسی کیستهای فکی در افراد پیر به ترتیب شایع ترین موارد شامل کیست رادیکولار، دنتی ژروس و کراتوسیست گزارش شده که در فک بالا شیوع بیشتری داشتند (۱۴). در مطالعه دیگر در هند که به بررسی تومورهای فکی در افراد پیر پرداختند، گزارش نمودند که این تومورها در فک پایین مردان پیر و بالای ۶۰ سال شیوع بیشتری داشته و در اکثر موارد غیر ادنتوژنیک و خوش خیم هستند. شایع ترین تومورهای ادنتوژنیک خوش خیم شامل آملوبلاستوما، تومور ادنتوژنیک کراتوسیست، میگزوما و شایع ترین تومورهای غیر ادنتوژنیک، مالتیپل میلوما، ژانت سل گرانولوم مرکزی و فیبروم اسفیه گزارش شد (۱۵).

اهمیت بررسی تومورهای فکی در افراد پیر به این جهت است که این افراد بدلیل تحلیل استخوان نیاز به روش درمانی محافظه کارانه تری دارند. در مورد اخیر بدیل احتمال

است، به طوری که حتی این عود تا ۴۰ سال بعد از درمان اولیه دیده شده است (۲۱). بنابراین پیگیری های دوره ای در خصوص این دسته از بیماران بویژه در افراد پیر توصیه می شود.

### نتیجه گیری

تومورادنتوژنیک کراتوسیست بدلیل تنوع علایم بالینی، رادیوگرافی باید در تشخیص افتراقی ضایعات داخل استخوانی در افراد مسن مورد توجه قرار گیرد. در افراد پیر به دلیل ناتوانی فیزیکی، انتخاب روش درمانی مناسب و پیگیری طولانی مدت بعد از جراحی ضروری به نظر می رسد.

### قدردانی

بدینوسیله نویسندگان مقاله از زحمات خانم رخت اعلی در رنگ آمیزی اسلایدهای میکروسکوپی قدردانی می - کنند.

سیستمیک، ناتوانی بیمار همگی بر روی روش درمانی انتخاب شده توسط جراح و پیش آگهی موثر است به طوریکه با افزایش سن بهتر است درمان محافظه کارانه تر و پیگیری طولانی مدت صورت گیرد (۱۹).

هر چند درمان های مختلفی از روش های محافظه کارانه مانند: enucleation (با یا بدون کورتاژ)، decompression و مارسوپالیزاسیون تا روش های تهاجمی مانند: استکتومی محیطی با وسایل روتاری، کرایوتراپی با نیتروژن مایع و کاربرد کارنوی و رزکسیون فک گزارش گردیده است، اما یک رویکرد جهانی پذیرفته شده وجود ندارد. ریشه کن کردن کیست، کاهش خطر عود و مرگ و میر ناشی از جراحی اهداف اصلی تمام تکنیک ها می باشد (۲۰).

در گزارش مورد اخیر استکتومی محیطی و خروج کامل ضایعه انجام شد. در عرض ۱۴ ماه پیگیری بیمار هیچ عودی مشاهده نشد.

مطالعات صورت گرفته نشان داده است که تومورهای ادونتوژنیک کراتوسیست در ۱۲ تا ۵۱٪ موارد عود داشته

### منابع

- 1-de Avila ED, de Molon RS, Massucato EM, Hochuli-Vieira E. Relationship between the prevalence of the dentigerous cyst and the odontogenic keratocyst tumor and the current etiologic hypothesis. *J Craniofac Surg* 2009;20(6):2036-40.
- 2-Menon S. Keratocystic odontogenic tumors: Etiology, pathogenesis, and treatment revisited. *J Maxillofac oral Surg* 2015;14(3):541-47.
- 3-Ali M, Baughman RA. Maxillary odontogenic keratocyst: A common and serious clinical misdiagnosis. *J Am Dent Assoc* 2003;134(7):877-83.
- 4-Shear M. *Cysts of the Oral and Maxillofacial Regions*. 4th ed. Singapore: Blackwell Munksgaard; 2007. p. 6-58.
- 5-Shear M. Developmental odontogenic cysts. An update. *J Oral Pathol Med* 1994;23(1):1-11.
- 6-Stoelinga PJW. Long-term follow-up on keratocysts treated according to a defined protocol. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2001;30(1):14-25.
- 7-Singh HP, Nayar A, Raj A, Kumar P. Are all odontogenic keratocysts keratocystic odontogenic tumors? Correlation between imaging features and epithelial cell proliferation. *J Clin Imaging Sci* 2013;3:3.
- 8-Ecker J., Horst R.T., Koslovsky D. Current role of Carnoy's solution in treating keratocystic odontogenic tumors. *Oral Maxillofac Surg* 2016;74(2):278-282.
- 9-Suzuki T, Sakashita H, Suka N, Suzuki S, Tanaka A, Kusama K. Keratocystic odontogenic tumor in elderly patient in the maxillary incisor region. Report of a case. *J Of Japanese Society of dentistry for medically compromised patient* 2006;15(3):139-43.
- 10-Philipsen HP. Om keratocyster (kolesten tomer) in the jaws. *Tandlaegebladet*. 1956;60(1):963-81.

- 11-Ebenezer V., Ramalingam B. Importance of different modalities of treatment for the management of keratocystic odontogenic tumour with five year follow-up. *J Clin Diagn Res* 2014;8(3):225–228.
- 12-Karoyanagi N,Sakuma H,Miyabe S,Machida J,Kaetsu A,Yokoi M, et al. Prognostic factors for keratocystic odontogenic tumor (odontogenic keratocyst): analysis of clinico-pathologic and immunohistochemical findings in cysts treated by enucleation.*J Oral Pathol Med* 2009;38(4):386-92.
- 13-Chkoura A,Chbicheb S,El Wady W.Keratocystic odontogenic tumor .a case report and review of the literature.*Internet J Dent Sci* 2008;6(2):1-6.
- 14-pechalova PF,Pavlov NV.Jaw cysts in elderly patient.*Clin Res Studies* 2012. <https://www.researchgate.net/publication/320127354>
- 15-Manas B,Nilesh P,Betina CH,Manika M.Prevalence of jaw tumors in elderly indian population:A retrospective histopathological analysis of 29 cases.*Oral maxillofac pathol* 2017;8(1):16-18.
- 16-Gurugubeli U,Tatapudi R,Moryam R,Sinhah P.A silent transformation of keratocystic odontogenic tumor to squamous cell carcinoma:A case report and review of literature.*J of indian academy of oral medicine and radiology* 2016;28(2):175-9.
- 17-Caixeta CA,Riberio CM,Carli ML,Fornias Sperandio F,Costa Pereira AA,Costa Hanemman JA. Decompression of an extensive keratocystic odontogenic tumor in elderly patient.*J Oral Maxillofac Surg Med pathol* 2017;29(3):284-87.
- 18-Kaplan I, Hirshberg A. The correlation between epithelial cell proliferation and inflammation in odontogenic keratocyst. *Oral Oncol* 2004;40(10):985–91.
- 19-de Menezes LM,de Suza Cruz EL,Carneiro Junior JT,Silva Kataoka Msd,Alves Junior SDM,Viana Pinherio JdJ. Maxillary ameloblastoma in elderly patient:Report of the surgical approach.*Human pathol* 2017;10(1):25-29.
- 20-Tolstunov L, Treasure T. Surgical treatment algorithm for odontogenic keratocyst: combined treatment of odontogenic keratocyst and mandibular defect with marsupialization, enucleation, iliac crest bone graft, and dental implants. *Oral Maxillofac Surg* 2008;66(5):1025–1036.
- 21-Stoelinga PJ. Long-term follow-up on keratocysts treated according to a defined protocol.*Int J Oral Maxillofac Surg* 2001;30(1):14-25.



## Odontogenic Keratocyst (okc) with Expansion in Elderly Patient- A Case Report

Safoura Seifi<sup>1\*</sup>, Marjan Kiani<sup>2</sup>, Ehsan Moodi<sup>3</sup>, Alireza Pournabi<sup>4</sup>

1-Assistant Professor of Oral and Maxillofacial Pathology.

2-Resident of Oral and Maxillofacial Pathology.

3-Associate Professor of Oral Radiology.

4-Assistant Professor of Oral and Maxillofacial Surgery.

1-Department of Oral and Maxillofacial Pathology, Oral Health Research Center, Institute of Health, Babol University of Medical Sciences, Babol, Iran.

2-Department of Oral and Maxillofacial pathology, Babol University of Medical sciences, Babol, Iran

3-Department of Oral Radiology, Babol University of Medical sciences, Babol, Iran

4-Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Babol University of Medical Sciences, Babol, Iran.

\*Corresponding author:

Safoura Seifi; Department of Oral and Maxillofacial Pathology, Oral Health Research Center, Institute of Health, Babol University of Medical Sciences, Babol, Iran.

Tel: +981132291408

Email: sf\_seify@yahoo.com

### Abstract

**Background and Objective:** Generally, keratocystic odontogenic tumor is an asymptomatic lesion and in rare cases, may occur in older patients. The purpose of the case report was to present the clinical, radiographic, pathological, treatment and follow up of a 69 years old female with keratocystic odontogenic tumor.

**Case Report:** Patient was an edentulous, 69 years old woman who was referred to our surgery department because of painless swelling which has developed 3 months ago. In radiological panoramic report, several ill defined multilocular radiolucency was seen. Pathological diagnosis of inflamed keratocystic odontogenic tumor was suggested. Treatment was done with enucleation and peripheral ostectomy. After 14 months of follow up, no recurrence was seen.

**Conclusion:** Keratocystic odontogenic tumor because of variable clinical presentation, radiographic and differential pathological diagnosis of intra-osseous oral lesions in old aged patients is necessary. In addition, in old patients, because of physical disability, selection of treatment procedure and long term follow up after surgery is necessary.

**Key words:** Odontogenic keratocyst, mandible, elderly patient.

►Please cite this paper as:

Seifi S, Kiani M, Moodi E, Pournabi AR. Odontogenic Keratocyst (okc) with Expansion in Elderly Patient-A Case Report. *Jundishapur Sci Med J* 2019; 17(6):631-639.

Received: Dec 5, 2018

Revised: Feb 16, 2019

Accepted: Feb 17, 2019