

ken slechts zeven publikaties aangetroffen met betrekking tot dit onderwerp, waarvan er vier handelen over ernstige complicaties in de vorm van thrombose van de a. carotis interna. Toch blijkt de afwijking niet zo zeldzaam (in 1980 acht gevallen in de Groninger Kliniek voor Mondziekten en Kaakchirurgie).

In de literatuur wordt weinig gesproken over diagnostische problemen, terwijl ook uit het onderzoek blijkt dat uit de anamnese de aard van het trauma meestal wel duidelijk is. Ons eigen patiëntenmateriaal bevestigt deze waarnemingen. De literatuur vermeldt niets over de indeling in diverse typen verwondingen. Wel beschrijven diverse 'case-reports' de eventuele complicaties soms zelfs met dodelijke afloop.

Zowel in de beschreven literatuur-gevallen als bij het patiëntenonderzoek worden occlusale foto's als diagnostisch hulpmiddel gebruikt om te controleren of er nog een gedeelte van het afgebroken voorwerp in de wond is achtergebleven.

In eerdere publikaties wordt nauwelijks aandacht geschonken aan de behandelingsmethode en het al of niet geven van anesthesie. Uit ons patiëntenonderzoek blijkt, dat in het algemeen wordt gehecht

onder lokale anesthesie. Eventuele latere algemene complicaties worden in de literatuur veelvuldig besproken in de vorm van 'case-reports'.⁵⁻¹¹

De behandelmethoden van de patiënten en hun revalidatie worden uitvoerig vermeld. Ons patiëntenonderzoek laat zien dat bij geen van de twaalf patiënten complicaties zijn opgetreden. De meeste verwondingen zoals die aan onze kliniek werden aangeboden, kwamen op het palatum voor. Er waren geen perforerende wonden naar de neus, nasopharynx, of inscheuringen van de vrije rand van het palatum molle. In acht van de twaalf gevallen werd de wond gehecht. Latere complicaties zoals wondinfecties, restperforaties of ernstige neurologische afwijkingen deden zich niet voor.

Summary:

Title: Intra-oral injuries in children.

Keywords: Oral surgery – Traumatology – Pencil injuries

An intra-oral injury in children in the area of the palate or pharynx resulting from a blow on a hard object which is kept in the mouth is called a pencil injury, impalement injury.

Incidence, causes, types of lesions, complications, therapy are described based on the case histories of 12 patients. Possible preventive measures are described. Data from the literature are compared with the results of the cases treated in our clinic. No serious complications such as thrombosis of the carotid artery occurred.

Literatuur:

1. Boering G. Aandoeningen van de mond en de speekselklieren. Leiden: Stafleu, 1968.
2. Crawford BS. The management of perforating wounds of the palate. Br J Plast Surg 1970; 23: 262.
3. Herms HA. Pfählungsverletzungen des Raches. Z Arztl Fortbild 1966; 60: 271.
4. Poeschel W. Pfählungsverletzungen des Gaumes. Dtsch Zahnarztl Z 1976; 31: 92.
5. Braudo M. Thrombosis of internal carotid artery in childhood after injuries in region of soft palate. Br Med J 1956; 1: 665-7.
6. Fairburn B. Thrombosis of internal carotid artery after soft palate injury. Br Med J 1957; 2: 750-1.
7. Martin NMD et al. Thrombosis of the internal carotid artery due to intra-oral trauma. South Med J 1969; 62: 103-7.
8. Pitner SE. Carotid thrombosis due to intra-oral trauma. N Engl J Med 1966; 274: 764-7.
9. Gülzow J et al. Eine gefährliche Pfählungsverletzung des weichen Gaumes im Kindesalter. Laryngol Rhinol Otol 1975; 54: 635-9.
10. Shannon E et al. Penetrating injuries of the parapharyngeal space. Arch Otolaryngol 1972; 96: 256-9.
11. Smith MEN. Injuries of the palate and fauces in children. Br J Clin Pract 1959; 13: 714.

Februari 1984.

Postbus 30.001,
9700 RB Groningen.

DE VERKALKENDE DENTOGENE CYSTE

BESPREKING VAN DRIE ZIEKTEGESCHIEDENISSEN

F. W. HUISMAN
W. A. M. VAN DER KWAST
I. VAN DER WAAL

Uit de afdeling Mondziekten en Kaakchirurgie en de afdeling Pathologie van de Mondholte van het Academisch Ziekenhuis der Vrije Universiteit te Amsterdam.

Trefwoorden: Pathologie – Verkalkende dentogene cyste

Voorwoord

De verkalkende dentogene cyste is een betrekkelijk zeldzame afwijking met meestal een gunstig beloop. Het leek ons voor de tandarts van belang op de hoogte te zijn met deze entiteit omdat het klinische en röntgenologische beeld suggestief kan zijn voor een cyste, een goedaardige of eventueel kwaadaardige nieuwvorming. Bij histopathologisch onderzoek kan verwarring optreden ten opzichte van het ameloblastoom, hetgeen tot 'overbehandeling' kan leiden.

Inleiding

In dit tijdschrift is in 1969 de eerste publicatie in de Nederlandse taal verschenen

over de 'verkalkende dentogene cyste'.¹ Vanuit de afdeling Mondziekten en Kaakchirurgie van het Academisch ziekenhuis der Vrije Universiteit zijn in 1979 twee patiënten beschreven bij wie de diagnose 'verkalkende dentogene cyste' of 'Gorlin-cyste' was gesteld.² In het nu volgende artikel worden, na een kort overzicht van de literatuur, drie nieuwe gevallen beschreven. Vervolgens wordt ingegaan op de huidige opvattingen betreffende de aard van deze afwijking.

Literatuuroverzicht

Het was Gorlin die in 1962 de naam 'verkalkende dentogene cyste' of 'Gorlin-cyste' introduceerde voor een kaakcyste met bepaalde histologische aspecten.³ Deze

Samenvatting:

Aan de hand van drie ziektegeschiedenissen worden de klinische, röntgenologische en histologische aspecten van de verkalkende dentogene cyste besproken.

Ondanks de benaming 'cyste' moeten sommige van deze afwijkingen wellicht als een nieuwvorming worden beschouwd. Het beeld op de röntgenfoto geeft soms reeds houvast voor de diagnose, maar is veelal niet kenmerkend. Bij histologisch onderzoek kan verwarring optreden met onder andere een ameloblastoom.

De behandeling bestond steeds uit chirurgische verwijdering; de controleperiode van twee jaar is te kort voor een definitief oordeel of de behandeling afdoende is geweest.

benaming wordt tot op heden nog algemeen gebruikt. In de WHO-classificatie voor dentogene tumoren is de cyste gerangschikt onder de goedaardige gezwellen.⁴ Bij de beschrijving van deze afwijking



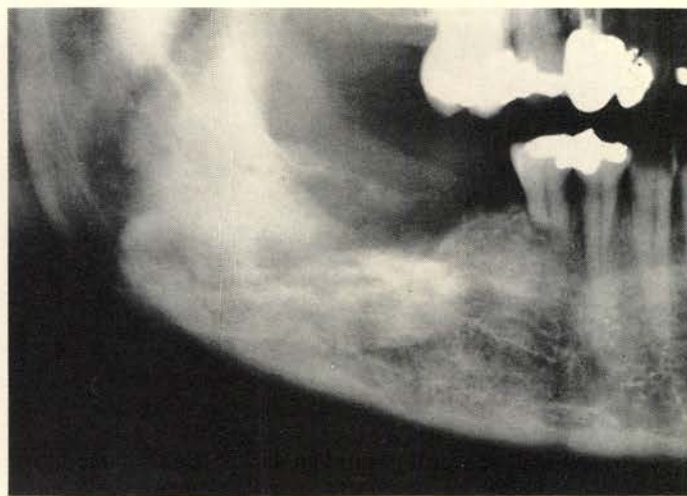
Afb. 1. Gedeelte van het orthopantomogram van patiënte 1 met het beeld van een folliculaire cyste van 36.



Afb. 2. Let in deze occlusale opname op de expansie van het buccale en linguale corticale bot.



Afb. 3. Gedeelte van het orthopantomogram van patiënte 2. Behalve de twee geretineerde molaren worden geringe, diffuus lucente veranderingen in de botstructuur gezien. Let ook op de wortelresorptie van 45.



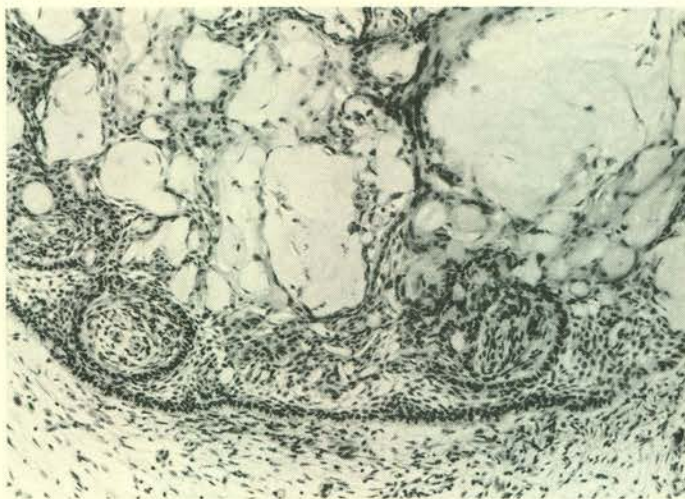
Afb. 4. Orthopantomogram van patiënte van afb. 3, 2 jaar na verwijdering van 46 en 47. Er is sprake van een niet scherp begrensde lucentie in de regio van 46 en 47. De wortelresorptie van 45 lijkt niet te zijn voortgeschreden.



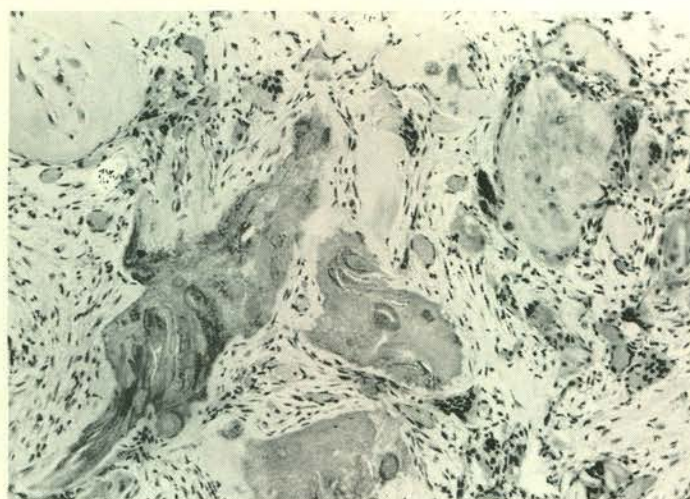
Afb. 5. Occlusale foto van patiënte 3 waarop 23 te zien is met het beeld van een folliculaire cyste.



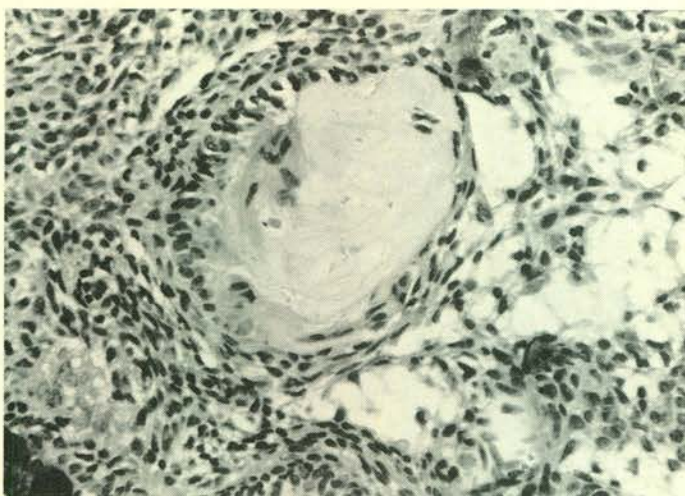
Afb. 6. De tandfoto laat duidelijk vlekvormige radiopake structuurtjes in de pericoronaire radiolucentie zien. Het beeld is suggestief voor de aanwezigheid van een vercalcende dentogene cyste.



Afb. 7.



Afb. 8.



Afb. 9.

Afb. 7. Ameloblastoomachtige architectuur van de epitheliale cellen met daarin verhoorning, passend bij een verkalkende dentogene cyste (H.E.-kleuring; oorspr. vergr. $\times 200$).

Afb. 8. In een ander deel van de afwijking werd verkalking gezien (donkere gebieden). Let ook op de talrijke meerkernige reuscellen (H.E.-kleuring; oorspr. vergr. $\times 200$).

Afb. 9. Detailopname. In het centrum worden nog vaag de contouren van de celgrenzen en kernen gezien. Dit zijn de 'ghost'-cellen (H.E.-kleuring; oorspr. vergr. $\times 500$).

in de WHO-uitgave wordt gesproken van een niet-neoplastische, cysteuze afwijking. Sommige auteurs echter beschouwen de afwijking wel als een neoplasma en brengen dit tot uitdrukking in een benaming als 'cystic calcifying odontogenic tumor'.⁵

Tot op heden zijn in de literatuur minder dan 200 gevallen beschreven. De cyste komt evenveel bij vrouwen als bij mannen voor en er is geen voorkeur voor een bepaald ras. Boven- en onderkaak zijn in gelijke mate aangedaan en de cyste is vrijwel altijd intra-ossaal gelegen. Recent is een extra-ossaal in een irritatiefibroom gelegen Gorlin-cyste beschreven.⁶ Over de etiologie en de pathogenese van de afwijking is nog niet veel bekend.⁷

Het klinisch beeld is soms dat van een langzaam in omvang toenemende intra-orale zwelling. Meestal is de afwijking echter symptomeloos aanwezig en hij wordt dan als toevallsbevinding bij röntgenologisch onderzoek ontdekt.

Het beeld op de röntgenfoto is meestal een goed omschreven één- of meerlobbige radiolucentie met in de cysteholte of cystewand opaciteiten, duidend op verkalkingen. De opaciteiten komen in 25% van de gevallen voor en vormen geen diagnos-

tisch kenmerk voor de afwijking.^{7 8} De cyste ontwikkelt zich soms in nauwe relatie tot een niet-doorgebroken element of een odontoom. Wortelresorptie en verandering in de stand van elementen gelegen naast de cysteholte zijn eveneens beschreven.^{9 10}

Bij exploratie blijkt de aandoening meestal cysteus te zijn, maar soms is er sprake van een solide massa.

Bij microscopisch onderzoek blijkt de afwijking met plaveiselcellen bekleed te zijn. De basale epitheel laag bestaat uit kubische of cilindervormige cellen waarvan de rangschikking aan die van een ameloblastoom doet denken. Verder ziet men reticulum-stellare-achtige cellen en zijn er sterk verhoornde epitheelcellen aanwezig, de zogenaamde 'ghost'- of 'shadow'-cellen. Deze worden zo genoemd omdat ze slechts vaag herkenbaar zijn in het histologische preparaat. Ze kunnen in wisselende mate verkalkt zijn.⁸ Ook worden wel veldjes dentine of osteodentine gezien, waarin soms melanine wordt gevonden.¹¹ Aan het elektronmicroscopische aspect zijn in de literatuur enkele publikaties gewijd.^{7 8 11 12} De behandeling van de verkalkende dentogene cyste bestaat uit grondige enucleatie.

Een enkele maal blijkt er recidief te kunnen optreden.^{3 5 7 9 10}

Patiënte 1

Een 19-jarige Marokkaanse vrouw klaagt over al zes maanden bestaande vage pijn in de onderkaak links. In een tijdsbestek van enige weken was er een zwelling ontstaan en was de pijn toegenomen. Patiënte is een gezonde jonge vrouw. De medische anamnese vermeldt geen bijzonderheden.

Bij het intra-orale onderzoek is een gavedentitie te zien. Elementen 46 en 36 zijn afwezig. Buccaal van de regio 36 valt een zwelling op, die bij palpatie crepiteert en pijnlijk is. Het orthopantomogram (afb. 1) toont een geïmpacteerd 36 met een radiolucentie rond de kroon. Op de oclusale opname is ter plaatse van 36 expansie van het buccale en linguale corticale bot te zien (afb. 2). De voorlopige diagnose wordt gesteld op een 'folliculaire cyste van 36'.

Onder plaatselijke verdoving is de cyste geënuceerd en 36 verwijderd. Het klinische beeld was dat van een folliculaire cyste. Histopathologisch onderzoek van het verwijderde weefsel liet een follikel zien met daarbij het beeld van een Gorlin-cyste. Bij controle twee jaar postoperatief

werd röntgenologisch een goede botingroei gezien. Patiënte blijft onder jaarlijkse controle.

Patiënte 2

Een 40-jarige vrouw werd verwezen voor verwijdering van twee geretineerde molaren uit de rechter onderkaak. Er waren geen klachten.

Intra-oraal bleken in de betreffende regio ogenschijnlijk alle molaren te ontbreken, zonder verdere bijzonderheden. Op het orthopantomogram (afb. 3) zijn twee diep geretineerde molaren te zien, omgeven door een niet scherp begrensde radiolucantie. Aangezien patiënte zich geen extracties in het rechter onderkwadrant kon herinneren, zijn het waarschijnlijk 46 en 47 die geretineerd zijn. Verder is sprake van wortelresorptie van 45 (afb. 3). De status vermeldt geen gegevens over de vitaliteit van laatstgenoemd element.

Gezien de diepe ligging van de molaren werd besloten de verwijdering in narcose te doen plaatsvinden. Bij de behandeling werden geen verdere bijzonderheden geconstateerd. Er werd geen weefsel uitgenomen voor histopathologisch onderzoek. Op het na twee jaar gemaakte orthopantomogram werd een botdefect in de rechter onderkaak gezien (afb. 4). De wortelresorptie van 45 leek niet te zijn voortgeschreden. Er werd besloten tot hernieuwde exploratie onder lokale anesthesie. Daarbij werd een holte gevonden, die gevuld was met pus en granulomateus weefsel. Er werd weefsel voor histopathologisch onderzoek opgestuurd, dat bij microscopisch onderzoek het beeld liet zien van een verkalkende odontogene cyste in combinatie met dat van een ameloblastisch fibroom.

Bij controle één jaar postoperatief toonde het röntgenbeeld goede botingroei. Patiënte blijft onder jaarlijkse controle.

Patiënte 3

Deze patiënte komt niet uit het bestand van het Academisch Ziekenhuis der Vrije Universiteit. Het betreft een 28-jarige vrouw die elders werd behandeld.

Er was sprake van een geretineerde 23 die een, overigens asymptomatische, zwelling van het palatum had veroorzaakt. De röntgenfoto toont een beeld dat zou kunnen passen bij de diagnose verkalkende dentogene cyste (afb. 5, 6). De behandeling bestond uit het in toto verwijderen van 23 met de cystebalg. Histologisch onderzoek toonde inderdaad aan dat het hier een verkalkende dentogene cyste betrof (afb. 7, 8,

9). Aangezien patiënte kort geleden is behandeld, zijn er nog geen gegevens over het verdere beloop bekend.

Discussie

Bij patiënte 1 kwam de cyste in samenhang voor met een geretineerde eerste ondermolaar, een element dat uiterst zelden geretineerd is.¹³ De verkalkingen op de röntgenfoto van patiënte 3 zijn suggestief voor de aanwezigheid van een verkalkende dentogene cyste, maar zij kunnen heel wel ontbreken.^{7, 8} Of bij patiënte 2 in eerste instantie al een Gorlin-cyste aanwezig was, is niet te achterhalen omdat er bij de vroegere verwijdering van de elementen uit de onderkaak geen histopathologisch onderzoek is verricht. Het voorkomen van een Gorlin-cyste in samenhang met een ameloblastisch fibroom is niet ongewoon. Uit de literatuur blijkt, dat Gorlin-cysten in samenhang met vele typen dentogene tumoren kunnen voorkomen.^{4, 14, 15}

In een recent histopathologisch onderzoek van 16 Gorlin-cysten concludeert Praetorius dat de afwijking als cyste (I) en als neoplasma (II) voor kan komen.⁹ De cystevorm verdeelt hij in drie varianten:

Type Ia: het uniloculaire type; blijkt op elke leeftijd voor te kunnen komen en is intra- of extra-ossaal gelegen. Het epitheel van de cystewand is kubisch of afgeplat. Er zijn 'ghost'-cellen en er is onrijp dentine (dentinoid) aanwezig.

Type Ib: lijkt op Ia, maar toont daarnaast de vorming van gecalcificeerd weefsel. In de cystewand is weefsel aanwezig dat lijkt op dat van het ameloblastisch fibroom. Type Ib zou voornamelijk op 10-29-jarige leeftijd voorkomen.

Type Ic: is een cyste met uitgebreide ameloblastoomachtige proliferaties in lumen en cystewand.

De neoplasmavorm, *type II*, onderscheidt zich histologisch en mogelijk ook wat betreft klinisch gedrag van type I doordat er duidelijk sprake is van invasieve groei van ameloblastoomachtige strengen in het omliggende weefsel. Het voorstel van Praetorius is om type II 'dentogene ghostceltumor' te noemen.⁹

Wanneer de indeling van bovengenoemde auteur wordt gevolgd, past het histologische beeld van de afwijking van de patiënten 1 en 3 bij type Ia en dat van patiënte 2 bij type Ib.

Omdat weinig bekend is over recidiefening van de Gorlin-cyste, worden de patiënten gecontroleerd, totdat er röntgenologisch geen afwijkingen meer gevonden worden.

Wij danken collega C.A. Bertheux, tandarts-kaakchirurg te Rotterdam, voor het ter beschikking stellen van de röntgenfoto's van patiënte 3.

Summary:

Title: Calcifying odontogenic cyst; review of 3 cases.

Keywords: Oral pathology - Calcifying odontogenic cyst

Three women, age 19, 28 and 40 years respectively, in whom a diagnosis of calcifying odontogenic cyst was made, are described.

In two of the cases the calcifying odontogenic cyst was associated with an impacted tooth. In the third patient the relation with the previously removed impacted 46 and 47 could not be demonstrated with certainty.

Treatment consisted of conservative surgical removal. The relatively short follow-up period of two years does not permit any firm statement about possible local recurrences.

Literatuur:

1. *Snijder J, Leeuwenburgh J.* De verkalkende dentogene cyste. Ned Tijdschr Tandheelkd 1969; 76: 81-93.
2. *Van Berge Henegouwen RW, Van der Kwast WAM, Van der Waal I.* De verkalkende odontogene cyste. Belg Tijdschr Tandheelkd 1979; 34: 205-12.
3. *Gorlin RJ, Pindborg JJ, Clausen FP, Vickers RA.* The calcifying odontogenic cyst - a possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. Oral Surg 1962; 15: 1235-43.
4. *Pindborg JJ, Kramer IRH, Torloni H.* Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. Geneva: World Health Organization, 1971.
5. *Freedman PD, Lumerman H, Gee JK.* Calcifying odontogenic cyst. A review and analysis of seventy cases. Oral Surg 1975; 40: 93-106.
6. *Winter WA.* Kalzifizierende odontogene Zyste und fibromatöser Tumor. Dtsch Mund Kiefer Gesichtschir 1980; 4: 225-7.
7. *Donath K, Kleinhaus V, Gundlach KKH.* Zur Pathogenese der kalzifizierende odontogene cyste (Gorlin Cyste). Virchows Arch A Path Anat Histol 1979; 384: 307-24.
8. *Sapp JP, Gardner DG.* An ultrastructural study of the calcifications in calcifying odontogenic cysts and odontomas. Oral Surg 1977; 44: 754-66.
9. *Praetorius F, Hjørtting-Hansen E, Gorlin R J, Vickers RA.* Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. Acta Odontol Scand 1981; 39: 227-40.
10. *McGowan RH, Browne RM.* The calcifying odontogenic cyst: a problem of preoperative diagnosis. Br J Oral Surg 1982; 20: 203-12.
11. *Soames JV.* A pigmented calcifying odontogenic cyst. Oral Surg 1982; 53: 395-400.
12. *Chen SY, Miller AS.* Ultrastructure of the keratinizing and calcifying odontogenic cyst. Oral Surg 1975; 38: 769-80.
13. *Pindborg JJ.* In: Pathology of dental hard tissues. Copenhagen; Munksgaard, 1970: 241-3.
14. *Farman AG, Smith SN, Nortje CJ, Grotepass FW.* Calcifying odontogenic cyst with ameloblastic fibro-odontome: one lesion or two? J Oral Pathol 1978; 7: 19-27.
15. *Shear M.* In: Cysts of the oral regions. 2e ed. Bristol: Wright, PSG, 1983: 79-86.

September 1984.

Postbus 7057,

1007 MB Amsterdam.