

CENTRAAL HEMANGIOOM VAN DE ONDERKAAK

SAMENVATTING

De ziektegeschiedenis is beschreven van een 35-jarige man met een centraal hemangioom van de onderkaak. Het niet tijdig herkennen door de tandarts van deze op zichzelf zeldzame aandoening kan in de praktijk tot een fatale afloop leiden.

HEARS P, ROUSSEL L, NEYT L, DE CLERCQ C, MEEUWS L. Centraal hemangioom van de onderkaak. Ned Tijdschr Tandheelkd 1988; 95: 361-3.

P. Haers, assistent kaakchirurgie
L. Roussel, assistent radiologie
L. Neyt, diensthoofd mondziekten en kaakchirurgie
C. De Clerq, kaakchirurg
L. Meeuws, radioloog

Uit de afdeling Mondziekten en Kaakchirurgie en de afdeling Radiologie en Echografie van het Algemeen Ziekenhuis St. Jan te Brugge.

Trefwoorden: Mondziekten en Kaakchirurgie - Hemangioom

Datum van acceptatie: 26 april 1988.

Adres: P. Haers, Ruddershove 10, 8000 Brugge.

1. INLEIDING

Het centraal hemangioom van de onderkaak is een zeldzame, goedaardige aandoening. De afwijking kan aanleiding geven tot dodelijke bloedingen. Meestal zijn er geen opvallende klachten en ook het röntgenologische beeld is niet kenmerkend.

In deze bijdrage wordt de ziektegeschiedenis van een 35-jarige man met een centraal hemangioom in de onderkaak besproken.

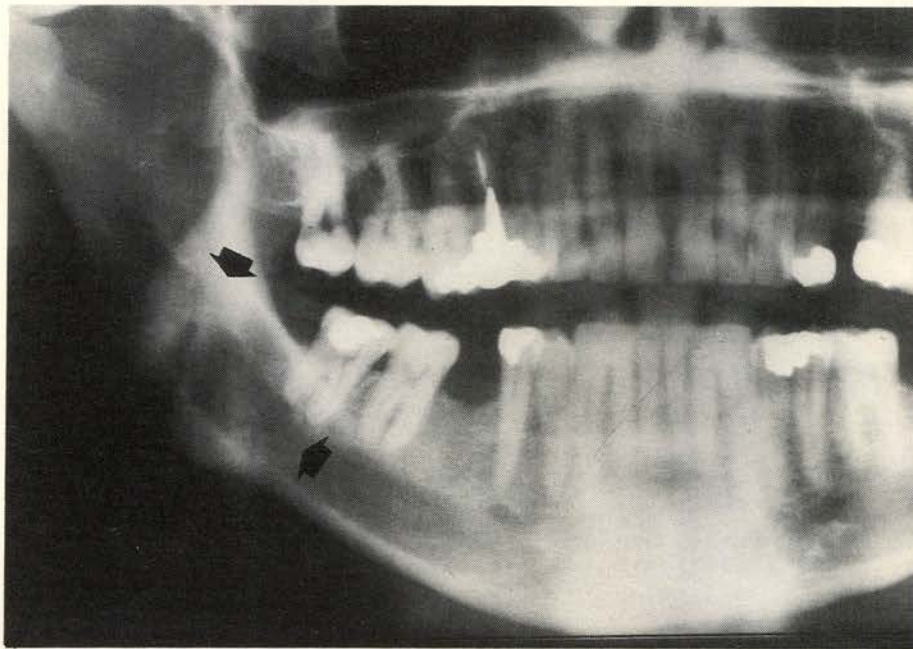
2. ZIEKTEGESCHIEDENIS

2.1. Anamnese en diagnose

Een 35-jarige man bezoekt zijn tandarts vanwege een sinds één week aanwezig vaag pijngevoel in de onderkaak rechts. Het klinisch onderzoek is niet erg relevant. De eerste molaar ontbreekt. De tweede en de derde molaar zijn niet kloppgevoelig. Er is geen zwelling van het kaakbot of de omgevende weke delen. Op de tandfoto van de 46 en de 47 worden geen duidelijke afwijkingen gezien.

Na zes weken ontstaat vrij plotseling paresthesie van het rechter deel van de onderlip en tegelijk een vaste, niet-pijnlijke zwelling van de rechterwang, distaal en vestibulair van de verstandskies. De 47 en 48 zijn licht mobiel. De omgevende gingiva is donkerrood en gezwollen. Besloten wordt om de patiënt naar de kaakchirurg te verwijzen.

Het orthopantomogram toont een ellipsvormige, niet scherp omschreven lucentie met een afmeting van ongeveer 4x2 cm. De laesie strekt zich uit van de apicale regio van de 48 tot in de kaakhoek (afb. 1). Er wordt gedacht aan een geïnfecteerde kyste uitgaande van de verstandskies. On-



Afb. 1. Het orthopantomogram toont een onscherp begrensd lucentie in de rechter kaakhoek.

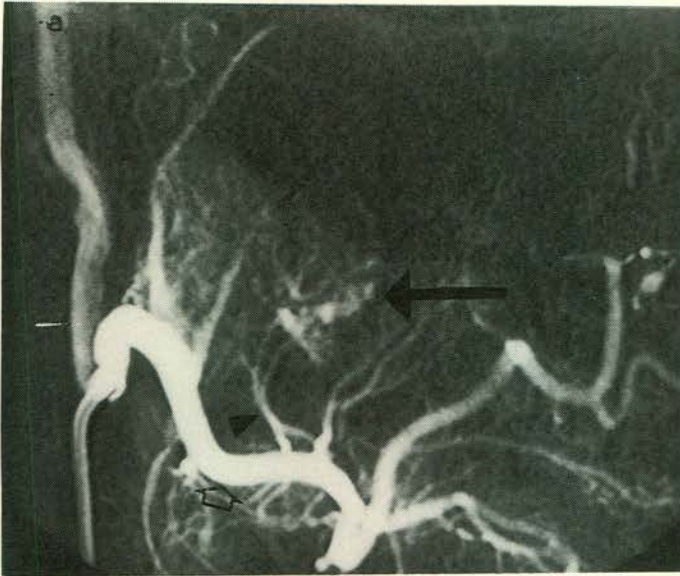
der algehele anesthesie wordt de zwelling distaal van de 48 ingesneden. Er is geen botcontact en er treedt onmiddellijk een massale bloeding op die met veel moeite met behulp van de tampon tot staan kan worden gebracht. Daarna werd de patiënt naar onze afdeling verwezen.

Gezien het klinische vermoeden van een hemangioom wordt een intra-arteriële digitale subtractie-angiografie uitgevoerd (afb. 2). Het hemangioom blijkt te worden gevoed door de a. masseterica van de a. facialis. Deze voedende arteria is slechts matig gehypertrofieerd. Tijdens de capillaire fase noteert men een inhomogene fase en 'blush' van contraststof ter hoogte van het botdefect. Er is geen vervroegde veneuze drainage. De vaatanomalie wordt

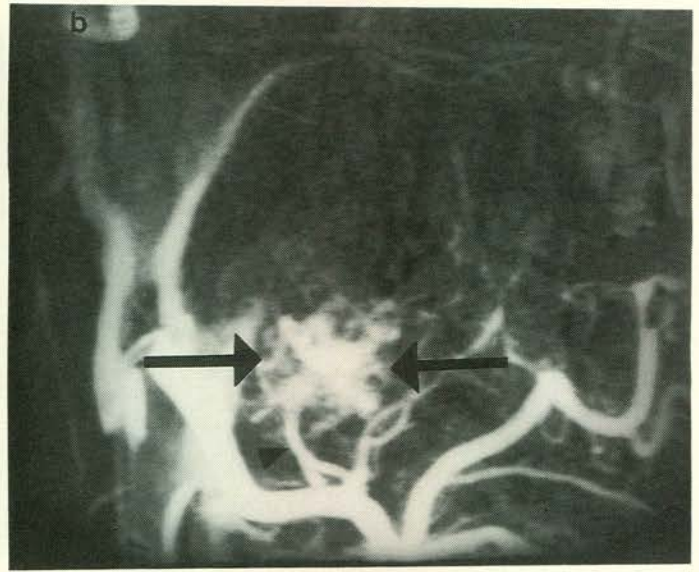
niet artificieel geëmboliseerd, omdat de voedende arterie niet selectief gekatheteriseerd kan worden. Bovendien bevindt de stam van de a. facialis-lingualis zich vlakbij de bifurcatie met de carotis interna, hetgeen het risico voor 'overflow' van embolisatiemateriaal in de carotis interna verhoogt. Daarom wordt besloten de afwijking chirurgisch te verwijderen, nadat eerst ook nog CT-scans en een isotopenscan zijn vervaardigd. De bevindingen van laatstgenoemde onderzoeken geven geen aanleiding tot verdere rapportage.

2.2. Operatie

De patiënt wordt onder algehele anesthesie



Afb. 2a. Selectieve arteriografie. Het hemangioom (grote pijl) wordt hoofdzakelijk gevoed door de ramus submentalis (pijlpunt) van de arteria facialis (open pijl).



Afb. 2b. Er is een inhomogene capillaire 'blush' en stase op niveau van de afwijking.

sie en hypotensie met een gemiddelde systolische druk tussen 70 en 80 mm Hg behandeld. Het is de bedoeling de afferente vaten te ligeren en daarna een partiële kaakresectie uit te voeren.

Via een submandibulaire incisie worden de a. facialis en de a. lingualis, die zich onmiddellijk na de bifurcatie afsplitsen, vrijgelegd en afgebonden. Daarna volgt de carotis externa zelf. Omdat de daarop volgende dissectie vlot verloopt, zonder bijkomende ernstige bloedingen, wordt besloten af te zien van de kaakresectie en wordt de afwijking gecuretteerd. Hierbij kan de n. alveolaris inferior, die tot hoog in de processus alveolaris is verdrongen, van het hemangioom worden losgemaakt.

Het postoperatief beloop is ongestoord. Na een week blijkt de sensibiliteit in het gebied van de n. alveolaris inferior weer normaal te zijn.

3. DISCUSSIE

Het centraal hemangioom van de onderkaak komt vooral voor in de tweede levensdecade, tweemaal meer bij vrouwen dan bij mannen.¹ Voorkomen in de bovenkaak is uitzonderlijk.

Veertien van de tot 1950 beschreven 90 patiënten zijn overleden ten gevolge van bloedverlies.² Ook bij onze patiënt was de afwijking weinig kenmerkend en werd in eerste instantie miskend. Een fatale afloop was niet denkbeeldig geweest.

De meest voorkomende klachten zijn (nachtelijke) gingivale bloedingen, één of meer mobiele gebitselementen, zwelling en paresthesie van de n. alveolaris.^{1,3}

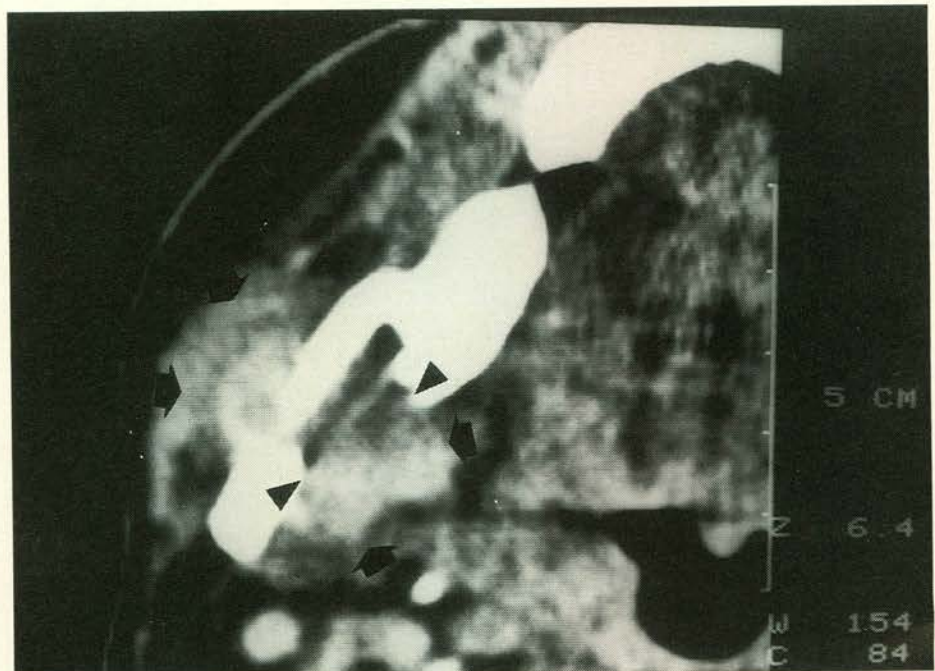
De tandfoto is meestal te klein om de afwijking af te beelden. Bij het zien van een afwijking die zich niet geheel op een tand-

foto laat afbeelden, is het aan te bevelen een orthopantomogram te vervaardigen, eventueel aangevuld met tomogrammen. Veelal is er een atypisch kysteus of multiloculair expansief beeld. Apicale wortelresorptie en tandverplaatsing zijn beschreven,⁴ en de canalis mandibulae kan verbreed zijn.^{1,2}

Het is dikwijls onmogelijk om aan de hand van alleen de röntgenologische bevindingen een juiste preoperatieve diagnose te stellen omdat het hemangioom kan

lijken op een radiculare kyste, een ameloblastoom, een aneurysmatische beenkyste, een centraal reuscelgranuloom, fibreuze dysplasie, een myxoom en een osteosaroom. In het beschreven geval wees naast het klinische beeld alleen de verdikte trabeculaire structuur ter hoogte van de overgangszone op een hemangioom.

De CT-scan wordt weinig vermeld in de in de literatuur beschreven ziektegeschiedenissen, doch speelt een belangrijke rol in het aantonen van de doorbraak van



Afb. 3. De CT-scan toont duidelijk de corticale doorbraak en de ingroei van het hemangioom in de omgevende weke delen. Dit is linguaal meer uitgesproken dan buccaal.

het corticale bot en uitbreiding in de weke delen (afb. 3).

Angiografie is de onderzoeksmethode bij uitstek om de diagnose te bevestigen.⁵ De voedende arteriën worden hiermee in beeld gebracht en men krijgt een indruk over de functionele aard van het angioom, een 'fast-flow'-type versus een 'low-flow'-type. Het eerste type heeft sterk verbrede arteriën en drainerende venen.

Het tweede type heeft slechts matig uitgezette voedende arteriën en drainerende venen. Angiografie geeft niet alleen morfologische en functionele informatie, maar bepaalt ook de indicatie voor een eventuele artificiële embolisatie.⁴ Embolisatie van een hemangioom kan succesvol zijn indien de voedende arterie selectief kan worden gekatheteriseerd en het vaatkluwen afgesloten kan worden met hetzij polyvinylalcohol-partikels of isobucryl-acrylaat. Het proximaal afsluiten van de voedende arterie is als behandeling onvoldoende omdat snel revascularisatie zal optreden door collaterale vaten.⁵ Om dezelfde reden is het afbinden van de arteria carotis externa als enige behandeling ontoereikend.⁷

Bij klinisch en radiologisch vermoeden van het bestaan van een hemangioom is het nemen van een biopsie gecontraïndiceerd. Een veilige en goede eerste benadering daarentegen is de naaldaspiratie. Alleen bij de aneurysmatische beenkyste kan eveneens bloed geaspirieerd worden. Wanneer deze test positief is, dient eerst subtractieangiografie te worden uitgevoerd. Aan de hand daarvan kan het verdere behandlingsbeleid worden bepaald.⁸ Bovendien blijkt de aspiratie op zichzelf soms een therapeutisch effect te hebben. Er ontstaat een intratumorale bloeding die coaguleert om zich vervolgens te organiseren en te verbenen.^{8,9} Sommigen zijn zelfs overtuigd dat dit tot volledige resorptie van het hemangioom kan leiden en menen dat na aspiratie een afwachtende houding kan worden aangenomen.⁸ Alhoewel er melding is gemaakt van spontane regressie, vermoedelijk ontstaan als gevolg van multiple infarcten veroorzaakt door een verminderde bloedaanvoer, wordt toch meestal overgegaan tot behandeling.

Teneinde bij een operatie het bloedingsgevaar te reduceren, kunnen verschillende maatregelen genomen worden. De afferente vaten moeten eerst angiografisch ge-

identificeerd worden en superselectieve embolisatie van deze vaten is wenselijk, kort vóór de ingreep. Tijdens de ingreep kunnen deze vaten bovendien nog afgebonden worden, evenals de homolaterale a. carotis externa of zelfs beide.¹⁰ Omwille van de talrijke collateralen is het afbinden van de carotis alleen niet altijd voldoende om het bloedingsgevaar te verminderen.⁵ Een narcose onder hypotensie vermindert eveneens aanzienlijk het bloedingsgevaar.^{5,10} Een onmiddellijke bloedtransfusie moet mogelijk zijn.

Het hemangioom kan worden gecuretiseerd, hetgeen uiteraard het meeste bloedingsgevaar inhoudt.¹⁰ Blokresectie met onmiddellijke reconstructie is veiliger en zeker aangewezen voor grotere laesies.^{5,11}

Radiotherapie als behandeling van een hemangioom in het kaakbot is vaak ver-

meld in de literatuur. Hoewel er successen beschreven zijn, is er toch ook controversie over deze aanpak.¹⁰ Zo is er niet alleen twijfel aan de stralingsgevoeligheid van een hemangioom maar ook aan de wenselijkheid om bestraling toe te passen bij jonge patiënten. Deze behandelingsmethode is niet alleen schadelijk voor het condylair groeicentrum, de tanden en de speekselklieren, maar kan eveneens sarcomen induceren en goedaardige tumoren doen onttaarden.¹⁰

Samenvattend kan worden gesteld dat embolisatie de voorkeur geniet en dat bij onuitvoerbaarheid of mislukken daarvan chirurgische behandeling als een redelijk alternatief kan worden beschouwd. Bestraling komt in principe niet in aanmerking.

SUMMARY

CENTRAL HEMANGIOMA OF THE MANDIBLE

Key words: Oral Surgery – Hemangioma

The central hemangioma of the mandible is a rare but dangerous lesion which might be fatal. Only superselective subtraction angiography gives an exact diagnosis. Artificial embolisation is the therapy of choice. Surgery is a valid alternative. Small lesions may be treated by curettage. Block resection is a more safe procedure for the removal of major lesions of the mandible. Radiotherapy should be used only when there is no other treatment possible.

A case has been reported of a central hemangioma of the mandible in a 35-year-old man. Superselective embolisation was not possible. Therefore, the lesion was treated by curettage.

LITERATUUR

- ¹HAYWARD JR. Central cavernous hemangioma of the mandible: Report of Four Cases. *J Oral Surg* 1981; 39: 526-32.
- ²LAMBERG MA, TASANEN A. Fatality from central hemangioma of the mandible. *J Oral Surg* 1979; 37: 578-83.
- ³SCHINDEL J, MATZ S, EDLAN A. Central cavernous hemangioma of the jaws. *J Oral Surg* 1978; 36: 803-7.
- ⁴THORN JJ, et al. Arterial embolisation in the treatment of central hemangiomas of the maxilla: report of 2 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1986; april 24-2: 114-21.
- ⁵VAN DEN AKKER HP, KUIPER L, PEETERS LM. Embolisation of an arteriovenous malformation of the mandible. *J Oral Maxillofac Surg* 1987; 45: 255-60.
- ⁶DJINDJIAN R, MERLAND JJ. Super-selective arteriography of the external carotid artery. Berlin: Springer-Verlag, 1978.
- ⁷ABRAMS HL. Bone and soft tissue lesions of vascular origin. In: Abrams Angiography. Vascular and interventional radiology. Boston: Little, Brown and Company, 1983: 1961-5.
- ⁸NELSON CL, TOMICH CE, BUTTRUM JD, RANDOLPH GM. Spontaneous resolution of a central vascular lesion of the mandible following needle aspiration. *J Oral Maxillofac Surg* 1986; 44: 731-4.
- ⁹GOLDBERG S, STERN M, KAUFMAN P. Spontaneous regression of an intraosseous vascular lesion after aspiration: Report of a case. *J Oral Surg* 1972; 30: 734-6.
- ¹⁰SADWOSKY D, ROSENBERG RD, KAUFMAN J, LEVINE BC, FRIEDMAN JM. Central hemangioma of the mandible: report of four cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1981; 52: 471-7.
- ¹¹HOLT GR, TINSLEY PP, AUFDEMORTE TB, et al. Arteriovenous malformation of the mandible. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1983; 91: 573-8.