

Λεμφοεπιθηλιακή Κύστη Στόματος: Αναφορά Περίπτωσης και Ανασκόπηση της Βιβλιογραφίας.

Καλύβας Δ.*¹, Τόσιος Κ.Ι.**²

Από την *Κλινική της Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής (Διευθυντής: ο Καθ. Αγγ. Π. Αγγελόπουλος) και από το **Εργαστήριο Στοματολογίας (Διευθυντής: ο Καθ. Στ. Παπανικολάου), Οδοντιατρική Σχολή Πανεπιστημίου Αθηνών.

ΠΕΡΙΛΗΨΗ

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη είναι μία κύστη των μαλακών ιστών που χαρακτηρίζεται ιστολογικά από τη στενή σχέση του επενδυτικού επιθηλίου με λεμφικό ιστό. Είναι συχνή στην περιοχή κεφαλής-τραχήλου, ιδιαίτερα στην πλάγια τραχηλική χώρα και τις παρωτίδες, αλλά ενδοστοματικά θεωρείται ασυνήθης. Περιγράφεται μία περίπτωση λεμφοεπιθηλιακής κύστης που αναπτύχθηκε στο έδαφος του στόματος σε γυναίκα 37 ετών. Η βλάβη είχε τη μορφή μικρής, ασυμπτωματικής διόγκωσης με φυσιολογική χροιά και λεία επιφάνεια, ήταν δε ελαστική και ανώδυνη στην ψηλάφηση. Έγινε ολική χειρουργική εξαίρεση με τοπική αναισθησία και έξι μήνες μετά την αφαίρεση δεν έχει παρατηρηθεί υποτροπή. Γίνεται ανασκόπηση των περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακής κύστης στόματος που έχουν αναφερθεί στην προσιτή βιβλιογραφία, και παραθέτονται οι απόψεις για την παθογένεση της βλάβης.

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη (lymphoepithelial cyst) είναι μία κύστη των μαλακών ιστών που χαρακτηρίζεται ιστολογικά από τη στενή σχέση του επενδυτικού επιθηλίου με λεμφικό ιστό (Neville και συν. 1997). Οι λεμφοεπιθηλιακές κύστεις είναι συχνές στην πλάγια τραχηλική χώρα, ιδιαίτερα στις παρωτίδες, ενώ ενδοστοματικά είναι ασυνήθεις (Αγγελόπουλος και συν. 2000). Οι τραχηλικές λεμφοεπιθηλιακές κύστεις (βραγχιακές κύστεις, κύστεις βραγχιακών σχισμών ή βραγχιογενείς κύστεις) και οι λεμφοεπιθηλιακές κύστεις στόματος αν και παρουσιάζουν την ίδια ιστολογική εικόνα θεωρούνται διάκριτες κλινικοπαθολο-

γικές οντότητες. Λεμφοεπιθηλιακές κύστεις έχουν επίσης, περιγραφεί στο πάγκρεας (Tsuchiya και συν. 2000), το στόμαχο (Delvaux και συν. 1996), στο θυρεοειδή αδένα (Ryska και συν. 1997) και στους πνεύμονες (Brudnicki και συν. 2001).

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος εντοπίζεται συνήθως στο έδαφος του στόματος και την κάτω επιφάνεια της γλώσσας, εκατέρωθεν του καλινού, και λιγότερο συχνά σε άλλες θέσεις της γλώσσας, τη μαλακή υπερώα, το οπισθογόμφιο τρίγωνο, τις παρειές και τα χείλη (Ginta και Cataldo 1973), Buchner και Hansen 1980, Toto και συν. 1982, Sakoda και συν. 1983, Neville και συν. 1997). Εμφανίζεται κλινικά σαν μονήρες, στρογγυλό ή ωοειδές υποβλεννογόνιο ογκίδιο με φυσιολογικό ή λευκοκίτρινο χρώμα (Bhaskar 1966, Giunta και Cataldo 1973, Buchner και Hansen 1980, Neville και συν. 1997). Καλύπτεται από φυσιολογικό βλεννογόνο, είναι εκκίνητο και μαλακό στην ψηλάφηση, καθώς

1. Λέκτορας

2. Ειδικός Επιστήμονας

ση (Bhaskar 1966, Buchner και Hansen 1980, Giunta 1987, Neville και συν. 1997). Η διάμετρος της βλάβης είναι συνήθως 1 κιλ. ως 1 εκ., αν και έχουν αναφερθεί περιπτώσεις μεγαλύτερες από 1,5 εκ. (Bhaskar 1966, Giunta και Cataldo 1973, Buchner και Hansen 1980, Chaudhry και συν. 1984, Neville και συν. 1997). Η παρουσία ενοχλημάτων, όπως απότομη διόγκωση, πυόρροια, ή πόνος μετά από τραυματισμό, είναι ασυνήθιστη (Buchner και Hansen 1980, Neville και συν. 1997). Η διάρκεια της βλάβης πριν τη διάγνωση κυμαίνεται από 1 μήνα μέχρι «πολλά χρόνια» (Bhaskar 1966).

Ιστολογικά, η κυστική κοιλότητα βρίσκεται μέσα στο στοματικό βλεννογόνο και κοντά στο καλυπτικό επιθήλιο. Επενδύεται κατά κανόνα από λεπτό, μη κερατινοποιημένο ή παρακερατινοποιημένο πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο χωρίς καταδύσεις (Bhaskar 1966, Giunta και Cataldo 1973, Buchner και Hansen 1980, Chaudhry και συν. 1984, Neville και συν. 1997) και σπανιότερα από υπερκερατινοποιημένο πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο ή ψευδοπολύστιβο κυλινδρικό επιθήλιο (Giunta και Cataldo 1973, Buchner και Hansen 1980, Chaudhry και συν. 1984). Σε μερικές περιπτώσεις διακρίνονται και βλεννώδη κύτταρα. Στο τοίχωμα της κύστης βρίσκεται λεμφικός ιστός που ποικίλει σε πυκνότητα και διάταξη, από αραιές εστιακές διηθήσεις μέχρι πυκνές διάχυτες διηθήσεις με ευκρινή βλαστικά κέντρα σε διάφορα εξελικτικά στάδια (Giunta και Cataldo 1973). Τα φλεγμονώδη κύτταρα είναι κυρίως λεμφοκύτταρα, πλασματοκύτταρα, μονοκύτταρα και ιστοκύτταρα, και μπορεί να διηθούν και το επιθήλιο (Bhaskar 1966, Buchner και Hansen 1980, Chaudhry και συν. 1984). Ανοσοϊστοχημικά, διαπιστώνεται η παρουσία πολυκλώνικών ανοσοσφαιρινών (IgA, IgM, IgG), στα πλασματοκύτταρα και στο συνδετικό ιστό, και C3 και IgG στο κυτταρόπλασμα των ιστοκυττάρων (Toto και συν. 1982, Yamamoto και συν. 1987). Στο τοίχωμα της κύστης, σε σχέση με το λεμφικό ιστό ή έξω από αυτόν, μπορεί να βρεθούν εκφορητικοί πόροι, αδενοκυψέλες ή επιθηλιακές νησίδες (Bhaskar 1966, Chaudhry και συν. 1984). Η κυστική κοιλότητα περιέχει επιθηλιακά κύτταρα, κερατίνη, άμορφο πωσινόφιλο υλικό, και φλεγμονώδη κύτταρα (Giunta και Cataldo 1973, Buchner και Hansen 1980, Chaudhry και συν. 1984), ενώ έχει αναφερθεί και η παρουσία μικροβίων, αποικιών

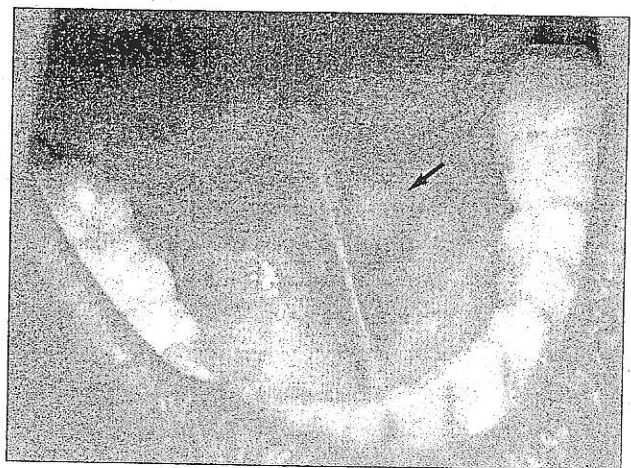
μυκήτων και ενδοσεπτιώσεων (Buchner και Hansen 1980, Toto και συν. 1982).

Στην ελληνική βιβλιογραφία έχουν περιγραφεί μέχρι σήμερα 5 περιπτώσεις λεμφοεπιθηλιακής κύστης (Παπαναγιώτου και συν. 1974, Λάσκαρης και Τσιχλάκης 1980, Παπανικολάου και Τριανταφύλλου 1984). Σκοπός της παρούσας εργασίας είναι η περιγραφή μίας περίπτωσης λεμφοεπιθηλιακής κύστης που αναπτύχθηκε στο έδαφος του στόματος, η ανασκόπηση των περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακής κύστης στόματος που έχουν αναφερθεί στην προσιτή βιβλιογραφία και η παράθεση των απόψεων για την παθογένεση της βλάβης.

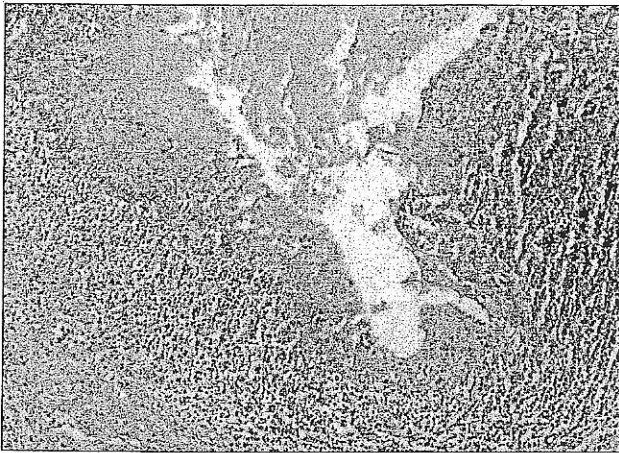
ΑΝΑΦΟΡΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Γυναίκα 37 ετών εξετάστηκε για μικρή διόγκωση στο έδαφος του στόματος, η οποία είχε γίνει αντιληπτή πριν 5 ημέρες. Η βλάβη ήταν ασυμπτωματική και δεν παρουσίασε μεταβολή στο σχήμα ή το μέγεθος κατά το χρόνο παρακολούθησης. Το ιστορικό της ασθενούς ήταν ελεύθερο νοσημάτων ή συστηματικής λήψης φαρμάκων.

Κατά την κλινική εξέταση παρατηρήθηκε ογκίδιο διαστάσεων 0.5x0.3x0.2 εκ. στο έδαφος του στόματος, αριστερά του γλωσσικού χαλινού (Εικ. 1). Η βλάβη είχε φυσιολογική χροιά και λεία επιφάνεια, ήταν δε ελαστική και ανώδυνη στην ψηλάφηση. Οι υπόλοιποι βλεννογόνοι δεν παρουσίαζαν παθολογικά ευρήματα. Με την πιθανή διάγνωση «βλεννοκίλη» έγινε ολική χειρουργική εξαίρεση της βλάβης με



Εικ. 1: Ογκίδιο στο έδαφος του στόματος, αριστερά του γλωσσικού χαλινού.



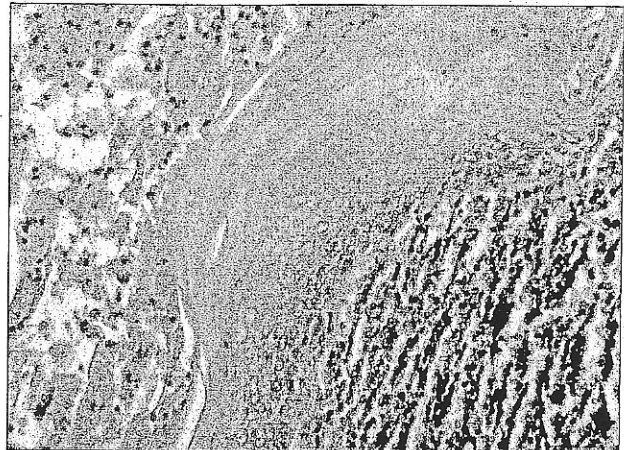
Εικ. 2: Κυστική κοιλότητα επενδυόμενη από πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο χωρίς επιθηλιακές καταδύσεις. Ο συνδετικός ιστός του τοιχώματος είναι διηθημένος από φλεγμονώδη κύτταρα (χρώση αιματοξυλίνης και ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 100).

τοπική αναισθησία. Η επούλωση του μετεγχειρητικού τραύματος ήταν ομαλή και η βλάβη δεν παρουσίασε υποτροπή οκτώ μήνες μετά την αφαίρεση.

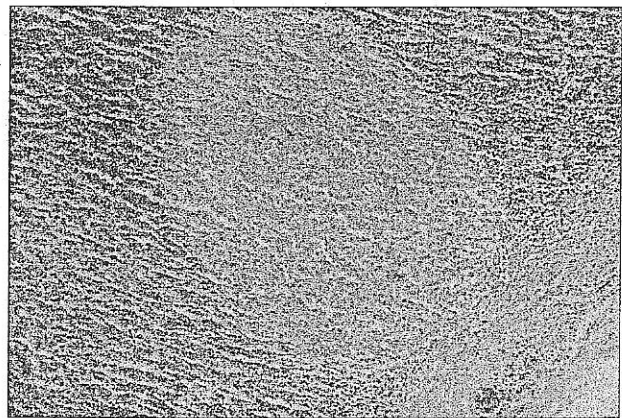
Το ιστοτεμάχιο μονιμοποιήθηκε σε υδατικό διάλυμα φορμόλης 10% και εγκλεισθηκε σε παραφίνη. Στη μικροσκοπική εξέταση τομών 5μ χρωσμένων με αιματοξυλίνη και ηωσίνη παρατηρήθηκε τμήμα παρακερατινοποιημένου στοματικού βλεννογόνου στο συνδετικό ιστό του οποίου υπήρχε μονόχωρη κυστική κοιλότητα επενδυόμενη από λεπτό κερατινοποιημένο και κατά περιοχές υπεκερατινοποιημένο πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο (Εικ. 2, 3). Το επιθήλιο δεν είχε επιθηλιακές καταδύσεις, ήταν διηθημένο από φλεγμονώδη κύτταρα, κυρίως λεμφοκύτταρα και δε συνέχονταν με το καλυπτικό επιθήλιο. Ο συνδετικός ιστός του τοιχώματος ήταν πυκνά διηθημένος από φλεγμονώδη κύτταρα, κυρίως λεμφοκύτταρα, πλασματοκύτταρα και ιστοκύτταρα, που σχημάτιζαν πολυάριθμα λεμφοζίδια (Εικ. 4). Η κυστική κοιλότητα περιείχε φολίδες κερατίνης, επιθηλιακά κύτταρα και φλεγμονώδη κύτταρα. Η ιστοπαθολογική εικόνα ήταν συμβατή με λεμφοεπιθηλιακή κύστη στόματος.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος θεωρείται ασυνήθιστη (Giunta και Cataldo 1973), αν και είναι πιθανό πως συχνά δε γίνεται αντιληπτή, καθώς είναι κατά κανόνα μικρό και ασυμπτωματικό (Παρασκευά-



Εικ. 3: Περιοχή του κυστικού επιθηλίου με παχιά κερατίνη στίβια (χρώση αιματοξυλίνης και ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 250).



Εικ. 4: Δομές που μοιάζουν με λεμφοζίδια (χρώση αιματοξυλίνης και ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 100).

πίνακα 1 παρουσιάζονται τα κύρια κλινικά χαρακτηριστικά 147 περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακής κύστης του στόματος από την προσιτή αγγλόφωνη βιβλιογραφία.

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη αναπτύσσεται συχνότερα στους άνδρες. Σε 134 ασθενείς όπου αναφερόταν το φύλο 77 (57,5%) ήταν άνδρες και 57 (42,5%) γυναίκες. Οι μικρότεροι ασθενείς με λεμφοεπιθηλιακή κύστη στόματος ήταν 4 ετών (Robins 1968, Flaiz 2000) και ο μεγαλύτερος 81 ετών (Buchner και Hansen 1980). Στο σχήμα 1 παρουσιάζεται η κατανομή κατά ηλικία των 45 περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακών κύστεων όπου αναφέρεται αναλυτικά η ηλικία και των 28 περιπτώσεων που μελέτησε ο

Πίνακας 1: Ηλικία, φύλο και εντόπιση 147 περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακών κύστεων στόματος από την αγγλόφωνη βιβλιογραφία.

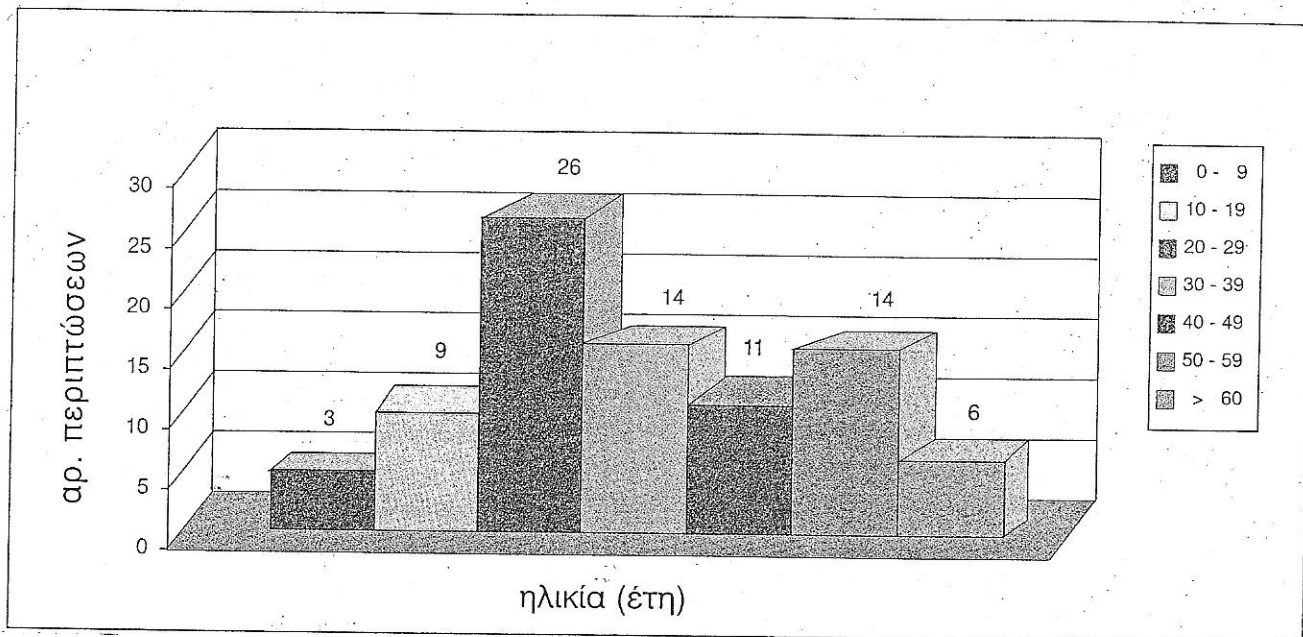
Συγγραφείς	Αριθμός	Ηλικία (έτη)	Φύλο		Εντόπιση
			α	θ	
Gold (1962)	1	32	1	0	έδαφος στόματος
Calman (1963)	1	40	1	0	έδαφος στόματος
Vickers και συν. (1963)	1	31	1	0	έδαφος στόματος
Bhaskar (1966)	24	15-65 (μέσος όρος 36,4)	17	7	15 έδαφος στόματος 8 γλώσσα (οπίσθια-πλάγια επιφάνεια) 1 γλώσσοϋπερώια πτυχή
Young και Claman (1967)	1	42	1	0	έδαφος στόματος
Robins (1968)	1	4	0	1	έδαφος στόματος
Knapp (1970)	13	δ/α	0	0	7 έδαφος στόματος 4 μαλακή υπερώα 2 γλώσσα (κάτω επιφάνεια)
Doyle και συν. (1970)	2	48, 20	1	1	2 έδαφος στόματος
Acevedo και Nelson (1971)	9	21, 23, 32, 21, 24, 24, 46, 20, 37 (μέσος όρος 27,5)	9	0	9 έδαφος στόματος
Merchart (1972)	1	22	1	0	έδαφος στόματος
Giunta και Cataldo (1973)	21	52, 55, 24, 26, 11, 18, 27, 12, 59, 50, 26, 7, 29, 11, 23, 46, 46, 65 (μέσος όρος 32,6)	9	12	17 έδαφος στόματος 2 μαλακή υπερώα 1 προστομιακή αύλακα 1 οπισθογόμφιο τρίγωνο
Buchner και Hansen (1980)	38	14-81 (μέσος όρος 39,8)	23	15	19 έδαφος στόματος 14 γλώσσα (7 κάτω επιφάνεια, 7 οπίσθια-πλάγια επιφάνεια) 2 μαλακή υπερώα 2 πρόσθια υπερώια πτυχή 1 προστομιακή αύλακα
Toto και συν. (1982)	6	25, 29, 57, 54, 45, 60 (μέσος όρος 45)	2	4	2 έδαφος στόματος 3 γλώσσα (2 κάτω επιφάνεια, 1 πλάγιος χείλος) 1 μαλακή υπερώα
Sakoda και συν. (1983)	1	19	0	1	γλώσσα (κάτω επιφάνεια)
Chaudhry και συν. (1984)	24	12-74 (μέσος όρος 39,5)	9	15	έδαφος στόματος και πλάγιο χείλος γλώσσας
Yamamoto και συν. (1987)	1	43	0	1	γλώσσα (κάτω επιφάνεια)
Kumara και συν. (1995)	1	29	1	0	έδαφος στόματος
Flaitz (2000)	1	4	1	0	έδαφος στόματος

κατανομή κατά δεκαετία. Ο μέσος όρος ηλικίας των 45 περιπτώσεων ήταν 32 έτη (± 16 έτη), και είναι συγκρίσιμος με αυτόν τριών μεγάλων σειρών, όπου οι μέσοι όροι ήταν 36,4 έτη (Bhaskar 1966), 39,5 έτη (Chaudhry και συν. 1984) και 39,8 έτη (Buchner και Hansen 1980), αντίστοιχα.

Από τις 123 περιπτώσεις όπου προσδιοριζόταν η ακριβής εντόπιση των βλαβών, προκύπτει πως αναπτύσσονται συχνότερα στο έδαφος του στόματος (63,6%), και ακολουθούν η γλώσσα (23,5%), κυρίως η κάτω επιφάνεια και οι πλάγιο-οπίσθιες επιφάνειες, η μαλακή υπερώα (8,1%), οι υπερώιες πτυχές

(2,4%), η προστομιακή αύλακα (1,6%) και το οπισθογόμφιο τρίγωνο (0,8%). Οι υπόλοιπες 24 περιπτώσεις εντοπίζονταν στο «έδαφος στόματος και το πλάγιο χείλος της γλώσσας» (Chaudhry και συν. 1984). Όλες οι λεμφοεπιθηλιακές κύστεις στόματος που έχουν περιγραφεί στην ελληνική βιβλιογραφία εντοπίζονταν στο έδαφος του στόματος (Παπαναγιώτου και συν. 1974, Λάσκαρης και Τσιχλάκης 1980, Παπανικολάου και Τριανταφύλλου 1984).

Η παθογένεση των λεμφοεπιθηλιακών κύστεων του στόματος δεν έχει διευκρινισθεί αν και έχουν διατυπωθεί πολλές υποθέσεις. Δεν αποκλείεται, δε,



Σχήμα 1: Κατανομή κατά ηλικίας 83 περιπτώσεων λεμφοεπιθηλιακών κύστεων στόματος.

διαφορετικοί παθογενετικοί μηχανισμοί να οδηγούν στην ανάπτυξη βλαβών με παρόμοια κλινικά και ιστοπαθολογικά χαρακτηριστικά (Vickers και συν. 1963, Giunta και Cataldo 1973, Toto και συν. 1982). Τα σημεία που έχουν συγκεντρώσει το ενδιαφέρον των ερευνητών είναι η προέλευση του επενδυτικού επιθηλίου και ο ρόλος του λεμφικού ιστού.

Ο Bhaskar (1966) θεώρησε πως το επιθήλιο είναι αδενικής προέλευσης και εγκλείεται σε έκτοπους λεμφαδένες ή διάχυτο λεμφαδενικό ιστό. Σύμφωνα με την άποψη αυτή, η λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος είναι μία αναπτυξιακή κύστη. Η παρουσία σε μερικές λεμφοεπιθηλιακές κύστεις ψευδοπολύστιβου κυλινδρικού επιθηλίου με βλενώδη κύτταρα θεωρείται από ορισμένους συγγραφείς (Giunta και Cataldo 1973) πως ενισχύει την άποψη της αδενικής προέλευσης, ενώ η εμφάνιση πλακώδους επιθηλίου αποδίδεται σε μεταπλασία του αδενικού επιθηλίου ως αποτέλεσμα χρόνιας φλεγμονής. Οι Chaudhry και συν. (1984) σημειώνουν, ωστόσο, πως οι ενδοστοματικές θέσεις όπου είναι συχνότερη η ετεροτοπία των σιελογόνων αδένων και του λεμφικού ιστού, δηλαδή η υπερώα και οι παρειές, αντίστοιχα, δεν αποτελούν συνήθεις θέσεις εντόπισης των λεμφοεπιθηλιακών κύστεων του στόματος.

πως η αυτομεταμόσχευση επιθηλίου από τον υπογνάθιο αδένα στους τραχηλικούς λεμφαδένες πειραματόζωων κατέληγε στις περισσότερες περιπτώσεις σε καταστροφή του μοσχεύματος λόγω αυτόλυσης, ενώ αντίστοιχη αυτομεταμόσχευση καλυπτικού επιθηλίου από τον παρειακό σάκο οδηγούσε στο σχηματισμό κύστεων που έμοιαζαν με λεμφοεπιθηλιακή κύστη στόματος. Οι Vickers και συν. (1963) θεωρούν πως το επιθήλιο μπορεί να είναι αδενικό ή καλυπτικό, και αποδίδουν το σχηματισμό της κύστης στον πολλαπλασιασμό και στην εκφύλιση των επιθηλιακών εγκλειστών ως αποτέλεσμα της διέγερσής τους από τραυματικά ή φλεγμονώδη ερεθίσματα, ή από τη βλάστηση του λεμφικού ιστού.

Οι Chaudhry και συν. (1984) πρότειναν πως η λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος προκαλείται από την πλακώδη μεταπλασία αποφραγμένων και διατεταμένων εκφορητικών πόρων του υπογλώσσιου αδένα (πόροι Rivinus) ή έκτοπων μικρών σιελογόνων αδένων, με δευτερογενή μη-ειδική φλεγμονώδη αντίδραση ή τοπική ανοσοαντίδραση προς τις μορφολειτουργικές μεταβολές του επιθηλίου (Young και Claman 1967). Η θεωρία αυτή μπορεί να απολογήσει τη σχεδόν αποκλειστική εντόπιση των βλαβών στο έδαφος του στόματος και την κάτω επιφάνεια της

μερικές περιπτώσεις λεμφοεπιθηλιακών κύστεων τοιχωματικών αδενικών λοβίων καθώς και ψευδοπολυστιβου κυλινδρικού επιθηλίου και βλεννωδών κυττάρων (Buchner και Hansen 1980). Επιπλέον, ο ανοσοφαινότυπος του λεμφικού ιστού σε λεμφοεπιθηλιακές κύστεις στόματος έχει τα χαρακτηριστικά αντιδραστικής φλεγμονής (Toto και συν. 1982, Yamamoto και συν. 1987). Σημειώνεται, όμως, πως σε καμία από τις περιπτώσεις που έχουν αναφερθεί δεν περιγράφονται κλινικά σημεία ενδεικτικά απόφραξης σιελογόνου αδένου, όπως πόνος ή διόγκωση.

Κατά τον Knapp (1970) η λεμφοεπιθηλιακή κύστη είναι μία ψευδοκύστη που δημιουργείται από την απόφραξη του ανοίγματος κρύπτης στοματικής αμυγδαλής λόγω άθροισης πύου, επιθηλιακών κυττάρων ή κερατίνης («αμυγδαλική ψευδοκύστη»), άποψη που γίνεται δεκτή από πολλούς συγγραφείς (Buchner και Hansen 1980, Toto και συν. 1982, Sakoda και συν. 1983). Η παρουσία βακτηριδίων στην κοιλότητα λεμφοεπιθηλιακών κύστεων (Buchner και Hansen 1980, Toto και συν. 1982), η συνέχεια του επενδυτικού επιθηλίου με το καλυπτικό επιθήλιο (Knapp 1970, Giunta και Cataldo 1973, Toto και συν. 1982, Chaudhry και συν. 1984), η εμφάνιση της βλάβης σε μεγάλο φάσμα ηλικίας, η επιφανειακή εντόπιση και το μικρό μέγεθος (Sakoda και συν. 1983) ενισχύουν την άποψη αυτή. Ωστόσο, άλλοι συγγραφείς (Acevedo και Nelson 1971) δεν επιβεβαιώνουν τη συνέχεια της κυστικής κοιλότητας με το καλυπτικό επιθήλιο. Επισημαίνουν, δε, πως οι θέσεις όπου εμφανίζονται συχνότερα οι λεμφοεπιθηλιακές κύστεις δε συμπίπτουν με εκείνες όπου είναι συχνές οι αμυγδαλές (Chaudhry και συν. 1984).

Η συμμετοχή των επιθηλιακών υπολειμμάτων που προκύπτουν από την ατελή συνένωση των εμβρυικών αποφύσεων στην παθογένεση των λεμφοεπιθηλιακών κύστεων του στόματος (Robins 1968) αμφισβητείται, κυρίως λόγω των θέσεων όπου αναπτύσσονται οι τελευταίες (Vickers και συν. 1963, Chaudhry και συν. 1984).

Εμβρυολογικά, το επενδυτικό επιθήλιο των λεμφοεπιθηλιακών κύστεων του στόματος, ανεξάρτητα του αν είναι αδενικό ή καλυπτικό, προέρχεται από το έξω βλαστικό δέρμα. Το στοιχείο αυτό διαφοροποιεί τις κύστεις του στόματος από τις κύστεις του τραχήλου, στις οποίες ο ανοσοφαινότυπος των κυττοκερα-

τινών είναι δηλωτικός προέλευσης από το έσω βλαστικό δέρμα του δεύτερου βραγχιακού θυλάκου (Regauer και συν. 1997).

Η κλινική εικόνα της λεμφοεπιθηλιακής κύστης δεν είναι παθογνωμονική. Η διαφορική διάγνωση περιλαμβάνει ψευδοκύστεις, όπως η βλεννοκίλη, καλοήθεις όγκους, όπως το λίπωμα, αναπτυξιακές κύστεις, κυρίως τη δερμοειδή ή επιδερμοειδή κύστη, καθώς και κυστικούς όγκους, όπως το βλεννοεπιδερμοειδές καρκίνωμα (Buchner και Hansen 1980, Flaitz 2000). Η διάγνωση τίθεται με την ιστολογική εξέταση.

Ιστολογικά, η λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος πρέπει να διακρίνεται από τις στοματικές αμυγδαλές. Οι στοματικές αμυγδαλές είναι λεμφοεπιθηλιακά όργανα που εντοπίζονται στα πλάγια χείλη και τη βάση της γλώσσας (γλωσσικές αμυγδαλές), τη μαλθακή υπερώα (υπερώιες αμυγδαλές), τα παρίσθια και το στοματοφάρυγγα (αδενοειδείς εκβλαστήσεις του φάρυγγα), ή βρίσκονται διάχυτα στο στοματικό βλεννογόνο (βοηθητικές στοματικές αμυγδαλές στο έδαφος του στόματος και την κάτω επιφάνεια της γλώσσας) και συνιστούν τον δακτύλιο του Waldeyer (Vickers και συν. 1963, Knapp 1970, Neville και συν. 1997). Στις αμυγδαλές ο λεμφικός ιστός βρίσκεται σε επαφή με το καλυπτικό επιθήλιο, το οποίο σχηματίζει μία ή περισσότερες εγκολλώσεις, τις κρύπτες, που διεισδύουν βαθιά στο υποκείμενο παρέγχυμα. Σε αντίθεση όμως με την ενιαία κυστική κοιλότητα των λεμφοεπιθηλιακών κύστεων, το επιθήλιο που επενδύει τις κρύπτες σχηματίζει ακανόνιστα διακλαδιζόμενους χώρους και επικοινωνεί με το καλυπτικό επιθήλιο.

Η περίπτωση που παρουσιάζεται έμοιαζε μικροσκοπικά με στοματική αμυγδαλή, ιδιαίτερα στη διάθεση του επενδυτικού επιθηλίου από φλεγμονώδη κύτταρα και στην παρουσία πολυάριθμων λεμφοεπιθηλιακών σχηματισμών στο συνδετικό ιστό του τοιχώματος. Ωστόσο, η κλινική εικόνα ογκιδίου σε συνδυασμό με την ύπαρξη μίας μονόχωρης κυστικής κοιλότητας το επιθήλιο της οποίας δεν συνεχόταν με το καλυπτικό επιθήλιο θεωρήθηκαν συμβατά με λεμφοεπιθηλιακή κύστη στόματος. Πρόκειται, πιθανώς, για πρώιμο στάδιο ανάπτυξης λεμφοεπιθηλιακής κύστης από απόφραξη και κυστική διάταση στοματικής αμυγδαλής, όπως υποστηρίζεται από τη θεωρία

του Knapp (1970).

Η λεμφοεπιθηλιακή κύστη παρουσιάζει καλοήγη βιολογική συμπεριφορά και άριστη πρόγνωση (Neville και συν. 1997). Η χειρουργική εξαίρεση γίνεται κυρίως για διαγνωστικούς λόγους (Neville και συν. 1997). Σε καμία από τις περιπτώσεις που έχουν περιγραφεί στη βιβλιογραφία δεν έχει αναφερθεί υποτροπή.

Hellenic Arch Oral Maxillofac Surg 3(4): 330 - 337, 2002.

SUMMARY

Intraoral Lymphoepithelial Cyst: Report of a Case and Review of the Literature.

Kalyvas D.*¹, Tosios K.I.**²

From the * Department of Oral and Maxillofacial Surgery (Head: Prof. A.P. Angelopoulos) and the **Department of Oral Pathology and Medicine (Head: Prof. S. Papanicolaou), Dental School, University of Athens.

A case of a lymphoepithelial cyst of the floor of the mouth in a 37-year-old woman is reported. The lesion presented as a small, non-tender tumor of normal color and elastic consistency. No recurrence has been noted six months after complete surgical excision. All cases of previously reported intraoral lymphoepithelial cysts are reviewed and theories regarding their origin are discussed.

1. Lecturer

2. Special Scientist

Key words: Lymphoepithelial cyst, cysts, mouth diseases, mouth floor.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

Αγγελόπουλος ΑΠ, Παπανικολάου Στ, Αγγελόπουλου Ε: Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία. Λίτσας 2000, σελ. 773-774.

Acevedo A, Nelson JF: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. Report of nine cases. *Oral Surg.* 31: 632-636, 1971.

Bhaskar SN: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. Report of twenty-four cases. *Oral Surg.* 21: 120-128, 1966.

associated (non-thymic) intrathoracic lymphoepithelial cyst in a child. *Pediatr. Radiol.* 31: 603-605, 2001.

Buchner A, Hansen LS: Lymphoepithelial cysts of the oral cavity. A clinicopathologic study of thirty-eight cases. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 50: 441-449, 1980.

Calman HJ: Sublingual branchiogenic cyst. Report of a case. *Oral Surg.* 16: 333-338, 1963.

Chaudhry AP, Yamane GM, Schalock SE, SunderRaj M, Jain R: A clinicopathological study of intraoral lymphoepithelial cysts. *J. Oral Med.* 39: 79-84, 1984.

Delvaux S, Ectors N, Geboes K, Desmet V: Gastric gland heterotopia with extensive lymphoid stroma: a gastric lymphoepithelial cyst. *Am. J. Gastroenterol.* 91: 599-601, 1996.

Doyle JL, Weisinger E, Manhold JH: Benign lymphoid lesions of the oral mucosa. *Oral Surg.* 29: 31-37, 1970.

Flaitz CM: Oral lymphoepithelial cyst in a young child. *Pediatric Dentistry* 22: 422-423, 2000.

Giunta J, Cataldo E: Lymphoepithelial cysts of the oral mucosa. *Oral Surg.* 35: 77-84, 1973.

Giunta JL: Bacterial plug versus pseudocyst of the tonsils. *Oral Surg: Oral Med. Oral Pathol.* 63: 202-207, 1987.

Gold C: Branchial cleft cyst located in the floor of the mouth: Report of a case. *Oral Surg.* 15: 1118-1120, 1962.

Knapp MJ: Pathology of oral tonsils. *Oral Surg.* 29: 295-304, 1970.

Kumara GR, Gillgrass TJ, Bridgman JB: A lymphoepithelial cyst (branchial cyst) in the floor of the mouth. *NZ Dental J* 91: 14-15, 1995.

Λάσκαρης Γ, Τοιχλάκης Κ: Λεμφοεπιθηλιακή κύστη στόματος. Αναφορά δύο περιπτώσεων. *Οδοντοστοματολογική Πρόσδος* 34: 23-30, 1980.

Merchant NE: Lymphoepithelial cyst of the floor of the mouth. *Br. Dent. J.* 132: 271, 1972.

Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE: Oral and Maxillofacial Pathology. WB. Saunders Company 1995, pp. 247-253.

Παπαναγιώτου Π, Καγιάνης Ι, Τριγωνίδης Γ: Λεμφοεπιθηλιακές κύστες του κοίλου του στόματος. Ανακοίνωσης δύο περιπτώσεων. *Οδοντιατρική* 4: 213-216, 1974.

Παπανικολάου Σ, Τριανταφύλλου Α: Λεμφοεπιθηλιακή κύστη του στόματος. *Ελλ. Στοματολ. Χρον.* 28: 110-112, 1984.

Regauer S, Gogg-Kamerer M, Braun H, Beham A: Lateral neck cysts - the branchial theory revisited. A critical review and clinicopathological study of 97 cases with special emphasis on cytokeratin expression. *APMIS* 105: 623-630, 1997.

Robins RB: Sublingual branchial cleft cyst: A case report. *Laryngoscope* 288-294, 1968.

Ryska A, Vokurka J, Michal M, Ludvikova M: Intrathyroidal lymphoepithelial cyst. A report of two cases not associated with Hashimoto's thyroiditis. *Pathol. Res. Pract.* 192: 377-380, 1996.

- Sakoda S, Kodama Y, Shiba R*: Lymphoepithelial cyst of the oral cavity Report of case and review of the literature. *Int. J. Oral Surg.* 12: 127-131, 1983.
- Toto PD, Wortel JP, Joseph G*: lymphoepithelial cysts and associated immunoglobulins. *Oral Surg.* 54: 59-65, 1982.
- Tsuchiya Y, Suzuki S, Sakaguchi T, Kojima Y, Okamoto K, Kurachi K, Konno H, Baba S, Nakamura S*: Lymphoepithelial cyst of the pancreas: report of a case. *Surgery Today* 30: 856-60, 2000.
- Vickers RA, Gorlin RJ, Smart EA*: Lymphoepithelial lesions of the oral cavity. Report of four cases. *Oral Surg.* 16: 1214-1222, 1963.
- Vickers RA, von den Mühl OH*: An investigation concerning inducibility of lymphoepithelial cysts in hamsters by autogenous epithelial transplantation. *J. Dent. Res.* 45: 1029-1032, 1966.
- Yamamoto H, Fukumoto M, Matsumoto T, Gunge M, Otake S*: An immunohistochemical study of a lymphoepithelial cyst occurring on the ventral surface of the tongue. *J. Nihon Univ. Sch. Dent.* 29: 206-210, 1987.
- Young WG, Claman SM*: A lymphoepithelial cyst of the oral cavity. Report of a case. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.* 23: 62-70, 1967.

Διεύθυνση για ανάτυπα:

Δήμος Καλύβας

Κλινική Χειρουργικής Στόματος

Οδοντιατρική Σχολή Παν/μίου Αθηνών

Θηβών 2, 11527 Αθήνα