

# ΕΝΑΣΒΕΣΤΙΟΥΜΕΝΟΣ ΚΥΣΤΙΚΟΣ ΟΔΟΝΤΟΓΕΝΗΣ ΟΓΚΟΣ. ΑΝΑΔΡΟΜΙΚΗ ΜΕΛΕΤΗ ΤΩΝ ΚΛΙΝΙΚΩΝ ΧΑΡΑΚΤΗΡΙΣΤΙΚΩΝ 27 ΠΕΡΙΠΤΩΣΕΩΝ.

Ν. ΠΡΟΥΝΤΖΟΣ\*, Κ. ΚΑΤΟΥΜΑΣ\*\*, Κ.Ι. ΤΟΣΙΟΣ\*\*\*, Ι.Γ. ΚΟΥΤΛΑΣ\*\*\*\*, Α. ΣΚΛΑΒΟΥΝΟΥ-ΑΝΔΡΙΚΟΠΟΥΛΟΥ\*\*\*\*\*

## ΠΕΡΙΛΗΨΗ

**Η** ενασβεστιούμενη οδοντογενής κύστη (*calcifying odontogenic cyst*) ή κύστη του Gorlin είναι μία ασυνήθιστη οδοντογενής βλάβη που αντιπροσωπεύει το 2% όλων των οδοντογενών βλαβών των γνάθων και παρουσιάζει ποικιλομορφία στην κλινική συμπεριφορά και την ιστοπαθολογική εικόνα. Στην πλέον πρόσφατη ταξινόμηση των οδοντογενών βλαβών από τον Παγκόσμιο Οργανισμό Υγείας, θεωρείται ως καλόηθες κυστικό νεόπλασμα οδοντογενούς προέλευσης και περιγράφεται ως ενασβεστιούμενος κυστικός οδοντογενής όγκος. Σκοπός της εργασίας ήταν η μελέτη των κύριων κλινικών και ακτινογραφικών χαρακτηριστικών 27 περιπτώσεων ενασβεστιούμενων κυστικών οδοντογενών όγκων και η σύγκρισή τους με τα ευρήματα προηγούμενων μελετών. Το υλικό της παρούσας αναδρομικής μελέτης αποτέλεσαν 27 περιπτώσεις ενασβεστιούμενων κυστικών οδοντογενών όγκων. Οι κλινικές πληροφορίες αντλήθηκαν από τα παραπεμπτικά ιστολογικής εξέτασης και αφορούσαν στην ηλικία, το φύλο, την ανατομική εντόπιση, την ακτινογραφική εικόνα και τη μέγιστη ακτινογραφική διάσταση της βλάβης. Διαπιστώθηκε πως ο ενασβεστιούμενος κυστικός οδοντογενής όγκος εμφανιζόταν συχνότερα στην τρίτη και τέταρτη δεκαετία, με μέση ηλικία εμφάνισης τα 40,24 έτη. Υπήρχε ελαφρά υπεροχή των ανδρών έναντι των γυναικών, και της άνω γνάθου έναντι της κάτω. Στην πλειονότητα των περιπτώσεων, η βλάβη απεικονιζόταν ακτινογραφικά ως απλή διαύγαση και οι διαστάσεις της κυμαίνονταν συχνότερα από 2 έως 4 εκατοστά.

## ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η ενασβεστιούμενη οδοντογενής κύστη (*calcifying odontogenic cyst*) ή κύστη του Gorlin είναι μία ασυνήθιστη οδοντογενής βλάβη που περιγράφηκε χωριστά από τους Gorlin και συν.<sup>1</sup> το

1962 και τον Gold<sup>2</sup> το 1963. Αντιπροσωπεύει το 2% όλων των οδοντογενών βλαβών των γνάθων<sup>3</sup> και παρουσιάζει ποικιλομορφία στην κλινική συμπεριφορά και την ιστοπαθολογική εικόνα<sup>4</sup>, που έχει οδηγήσει στη διατύπωση αντικρουόμενων απόψεων αναφορικά με την ονομασία και την ταξινόμησή της<sup>5</sup>. Στην πλέον πρόσφατη ταξινόμηση των οδοντογενών βλαβών (2005) από τον Παγκόσμιο Οργανισμό Υγείας (ΠΟΥ)<sup>6</sup>, η βλάβη περιγράφεται ως ενασβεστιούμενος κυστικός οδοντογενής όγκος (ΕΚΟΟ) και ορίζεται ως «καλόηθες κυστικό νεόπλασμα οδοντογενούς προέλευσης που χαρακτηρίζεται από προσομοιάζον με αδμαντινοβλάστημα επιθήλιο και κύτταρα φαντάσματα που μπορεί να ενασβεστιωθούν».

Ο ΕΚΟΟ αντιστοιχεί στο 0,37% έως 2,1% του συνόλου των οδοντογενών όγκων<sup>7-10</sup>. Συνήθως αναπτύσσεται στα οστά των γνάθων (κεντρικός ΕΚΟΟ),

Από το Εργαστήριο Στοματολογίας, Οδοντιατρική Σχολή, Εθνικό και Καποδιστριακό Πανεπιστήμιο Αθηνών και το Division of Oral Pathology, Dental School, University of Minnesota, Minneapolis, USA.

\* Οδοντίατρος, MSc Παθολογίας Στόματος, εξειδικευθείς στη Στοματολογία.

\*\* Οδοντίατρος, Ιατρός, MSc Παθολογίας Στόματος.

\*\*\* Επίκουρος Καθηγητής.

\*\*\*\* Associate Professor.

\*\*\*\*\* Καθηγήτρια και Διευθύντρια.

ΟΡΟΙ ΕΥΡΕΤΗΡΙΑΣΜΟΥ: Όγκοι γνάθων, Οδοντογενείς όγκοι, Ενασβεστιούμενη οδοντογενής κύστη, Κύτταρα φαντάσματα.

ενώ η εξωοστική εντόπιση στα ούληα (περιφερικός ΕΚΟΟ) είναι πιο σπάνια, με ποσοστό που υπολογίζεται περίπου στο 12% έως 20%<sup>4,5,11-14</sup>. Οι κεντρικοί ΕΚΟΟ εκδηλώνονται ως ανώδυνες διογκώσεις των γνάθων που αναπτύσσονται αργά και αποτελούν συχνά τυχαίο ακτινογραφικό εύρημα<sup>7,12,15</sup>. Οι περιφερικοί ΕΚΟΟ έχουν τη μορφή μισχωτών ή άμισχων ογκιδίων των ούληων, χωρίς ιδιαίτερα κλινικά χαρακτηριστικά<sup>4,16-19</sup>. Δεν υπάρχει προτίμηση φύλου, με τους κεντρικούς ΕΚΟΟ να είναι συχνότεροι σε ασθενείς στη δεύτερη δεκαετία της ζωής τους, και τους περιφερικούς στην έκτη δεκαετία<sup>7,20-22</sup>. Τόσο οι ενδοοστικές όσο και οι εξωοστικές βλάβες, εμφανίζονται με την ίδια περίπου συχνότητα και στις δύο γνάθους, με προτίμηση για την περιοχή τομέων και κυνοδόντων<sup>4,5,7,11,20,23</sup>.

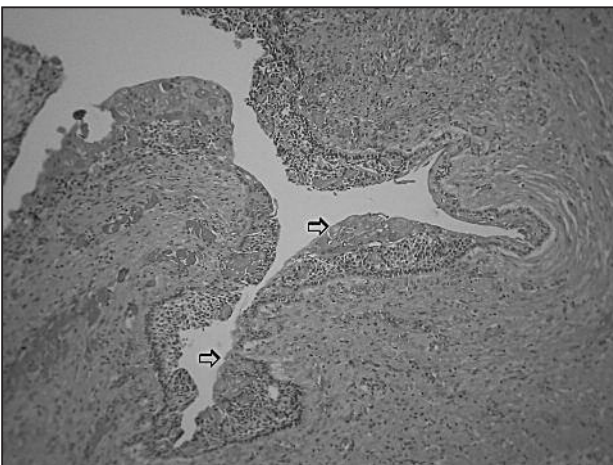
Ιστολογικά<sup>4,11,15</sup>, ο ΕΚΟΟ εμφανίζει κοιλότητα, η οποία περιβάλλεται από πυκνό ινώδη συνδετικό ιστό και επενδύεται από μη κερατινοποιημένο οδοντογενές επιθήλιο (εικ. 1). Τα περιφερικά κύτταρα του επιθηλίου προσομοιάζουν με αδαμαντινοβλάστες, ενώ τα κεντρικά με το αστεροειδές δίκτυο του οργάνου της αδαμαντίνης. Διαγνωστικό εύρημα είναι η παρουσία κυττάρων φαντασμάτων (εικ. 2). Πρόκειται για σφαιροειδή και ελαφρώς ημισφαιρικά κύτταρα που διατηρούν τα κυτταροπλασματικά τους όρια, έχουν κενό χώρο στη θέση του πυρήνα, και βρίσκονται μέσα στο επενδυτικό επιθήλιο, επεκτείνονται ή ακόμα και πληρούν την κυστική κοιλότητα, ή διεισδύουν στο συνδετικό ιστό του τοιχώματος, εγείροντας αντίδραση ξένου σώματος<sup>24</sup>. Συχνά τα κύτταρα φαντάσματα εμφανίζουν ενασβεσίωση, αρχικά με

μορφή ηεπτών βασεόφιων κοκκίων ή εκτεταμένων μαζών. Κύτταρα φαντάσματα ανευρίσκονται και σε άλλες οδοντογενείς βλάβες, όπως το αδαμαντινοβλάστημα, το οδόντωμα και το αδαμαντινοβλαστικό ινοοδόντωμα<sup>11,24,25</sup>, αλλά και στο ενασβεστιούμενο επιθηλίωμα του Malherbe στο δέρμα και στο κρανιοφαρυγγίωμα της υπόφυσης<sup>11,25</sup>. Η φύση των κυττάρων φαντασμάτων είναι αμφιλεγόμενη, όπως ασαφής παραμένει και η διαδικασία ενασβεσίωσής τους<sup>4,11,24-27</sup>. Τέλος, στο τοίχωμα του ΕΚΟΟ μπορεί να παρατηρηθούν δυσπλαστική οδοντίνη ή άηθοι οδοντογενείς όγκοι, όπως σύνθετο ή σύμπλεκτο οδόντωμα, αδαμαντινοβλάστημα, αδαμαντινοβλαστικό ίνωμα, αδαμαντινοβλαστικό ινοοδόντωμα, αδενωματοειδής οδοντογενής όγκος και οδοντοαδαμαντινοβλάστημα<sup>4,11,15</sup>.

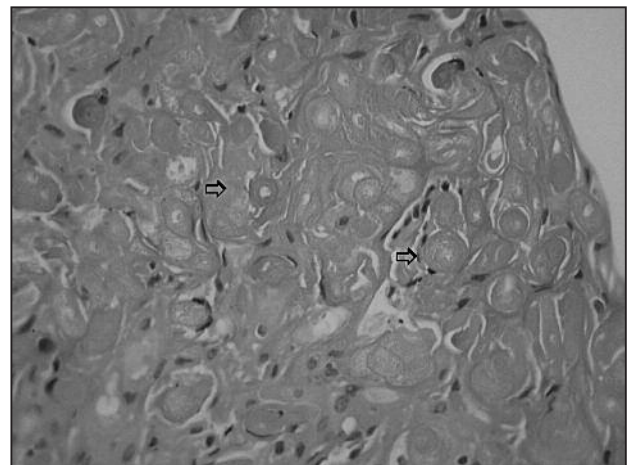
Σκοπός της εργασίας ήταν η μελέτη των κύριων κλινικών και ακτινογραφικών χαρακτηριστικών 27 περιπτώσεων ΕΚΟΟ και η σύγκρισή τους με τα ευρήματα προηγούμενων μελετών.

## ΥΛΙΚΟ ΚΑΙ ΜΕΘΟΔΟΣ

Το υλικό της παρούσας αναδρομικής μελέτης προέρχεται από τα ιστοπαθολογικά αρχεία του Εργαστηρίου της Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του Εθνικού και Καποδιστριακού Πανεπιστημίου Αθηνών (ΕΚΠΑ) μεταξύ των ετών 1972 και 2009 και του Division of Oral Pathology, School of Dentistry, University of Minnesota (UM) μεταξύ των ετών 1982 και 2009. Όλα τα παρασκευάσμα-



**Εικ. 1.** Η κυστική κοιλότητα επενδύεται από μη κερατινοποιημένο οδοντογενές επιθήλιο. Διακρίνονται ομάδες από κύτταρα φαντάσματα (βέλη). (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x200).



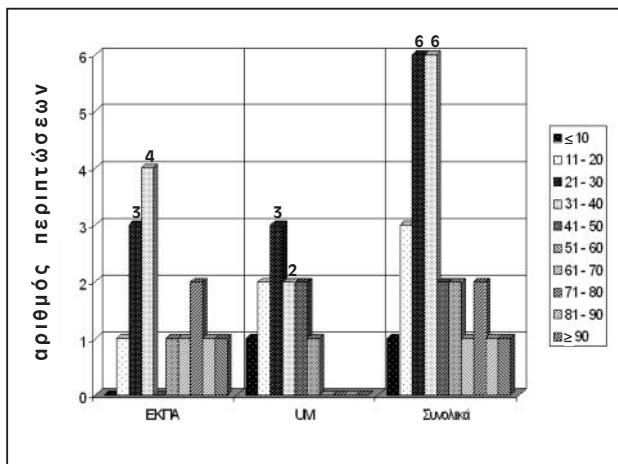
**Εικ. 2.** Αθροίσεις κυττάρων φαντασμάτων (βέλη) με το χαρακτηριστικό περίγραμμα του πυρήνα. (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x400).

τα που έφεραν διάγνωση κύστη/όγκος του Gorlin ή ενασβεστιούμενη οδοντογενής κύστη συγκεντρώθηκαν και επαναξιολογήθηκαν μικροσκοπικά. Οι κλινικές πληροφορίες αντλήθηκαν από τα παραπεμπτικά ιστολογικής εξέτασης και αφορούσαν στην ηλικία, το φύλο, την ανατομική εντόπιση, και επιπλέον για τις περιπτώσεις του ΕΚΠΑ στην ακτινογραφική εικόνα και τη μέγιστη ακτινογραφική διάσταση της βλάβης. Η κλινικο-στατιστική ανάλυση των χαρακτηριστικών της βλάβης έγινε για τα στοιχεία του κάθε εργαστηρίου ξεχωριστά και στη συνέχεια συνολικά. Οι διαφορές μεταξύ των δύο εργαστηρίων για το φύλο και την ηλικία ελέγχθηκαν για την ύπαρξη στατιστικής σημαντικότητας με τη δοκιμασία  $\chi^2$  ( $p < 0,05$ ).

**ΑΠΟΤΕΛΕΣΜΑΤΑ**

Στο ιστοπαθολογικό αρχείο του Εργαστηρίου Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του ΕΚΠΑ εντοπίστηκαν 14 περιπτώσεις κεντρικών ΕΚΟΟ και του UM 13 περιπτώσεις. Σε όλες τις περιπτώσεις η επαναξιολόγηση επιβεβαίωσε την αρχική διάγνωση. Δεν βρέθηκε περίπτωση περιφερικού ΕΚΟΟ ή ΕΚΟΟ σχετιζόμενου με άηλο οδοντογενή όγκο. Τα κύρια κλινικά χαρακτηριστικά των 27 περιπτώσεων παρουσιάζονται συνοπτικά στον πίνακα 1.

Αναφορικά με την ηλικία των ασθενών (εικ. 3), στα περιστατικά του ΕΚΠΑ παρατηρήθηκε υψηλότερη επίπτωση στην τέταρτη δεκαετία με ποσοστό 28,6%, με αμέσως επόμενη την τρίτη δεκαετία



Εικ. 3. Κατανομή ανά ηλικία 25 περιπτώσεων ενασβεστιούμενων κυστικών οδοντογενών όγκων από τα αρχεία ΕΚΠΑ και UM.

**Πίνακας 1.** Κύρια κλινικά χαρακτηριστικά των 27 περιπτώσεων ενασβεστιούμενων κυστικών οδοντογενών όγκων (N=27) από το ιστολογικό αρχείο των ΕΚΠΑ (1-14) και UM (15-27)

a/a	ηλικία	φύλο	εντόπιση
1	29	θήλυ	κάτω γνάθος
2	14	θήλυ	άνω γνάθος
3	22	θήλυ	κάτω γνάθος
4	35	άρρεν	άνω γνάθος
5	82	θήλυ	κάτω γνάθος
6	60	θήλυ	κάτω γνάθος
7	32	άρρεν	άνω γνάθος
8	25	θήλυ	άνω γνάθος
9	92	άρρεν	κάτω γνάθος
10	77	θήλυ	άνω γνάθος
11	73	θήλυ	κάτω γνάθος
12	62	άρρεν	άνω γνάθος
13	38	άρρεν	άνω γνάθος
14	31	άρρεν	κάτω γνάθος
15	25	άρρεν	κάτω γνάθος
16	48	θήλυ	κάτω γνάθος
17	-	-	-
18	8	άρρεν	άνω γνάθος
19	19	θήλυ	άνω γνάθος
20	33	άρρεν	άνω γνάθος
21	35	θήλυ	άνω γνάθος
22	-	άρρεν	άνω γνάθος
23	21	άρρεν	κάτω γνάθος
24	26	άρρεν	κάτω γνάθος
25	14	άρρεν	άνω γνάθος
26	49	άρρεν	άνω γνάθος
27	56	θήλυ	κάτω γνάθος

(21,4%). Μέση ηλικία ήταν τα 48±25,47έτη, με εύρος διακύμανσης από 14 έως 92 έτη. Στις περιπτώσεις του UM υψηλότερη επίπτωση καταγράφηκε την τρίτη δεκαετία με ποσοστό 23%. Η μέση ηλικία προσβολής υπολογίστηκε στα 30±15,41 έτη και το εύρος διακύμανσης ήταν από 8 έως 56 έτη. Η διαφορά μεταξύ των δύο εργαστηρίων δεν ήταν στατιστικώς σημαντική ( $p=0,07$ ).

Το 57,1% των ασθενών του ΕΚΠΑ ήταν γυναίκες και το 42,9% άνδρες, ενώ στο UM οι άνδρες συνιστούσαν το 66,6% και οι γυναίκες το 33,3% (αναλογία ανδρών:γυναικών 2:1). Η διαφορά μεταξύ των δύο εργαστηρίων δεν ήταν στατιστικώς σημαντική ( $p=0,225$ ).

Σχετικά με την ανατομική εντόπιση της βλάβης, στο ΕΚΠΑ καταγράφηκε ισοκατανομή μεταξύ άνω και κάτω γνάθου, ενώ στο UM το 53,9% των ΕΚΟΟ εντοπιζόταν στην άνω γνάθο και το 38,4% στην κάτω. Η εντόπιση δεν ήταν γνωστή σε μία βλάβη. Επιπλέον, δεν υπήρχαν στοιχεία για την ακριβή θέση των βλαβών στο οδοντικό τόξο. Η διαφορά μεταξύ των δύο εργαστηρίων δεν ήταν στατιστικώς σημαντική ( $p=0,671$ ).

Ακτινογραφικά, σε 13 περιπτώσεις του ΕΚΠΑ, το 78,5% είχε μορφή διαύγασης, ενώ το 14,3% συνδυασμού διαύγασης - σκίασης. Στο 50% των 13 περιπτώσεων, το μέγεθος της βλάβης ήταν 2 έως 4 εκατοστά, ενώ στο 21,4% η μέγιστη διάσταση ήταν μέχρι και 2 εκατοστά.

Συνολικά, στις 27 περιπτώσεις που μελετήθηκαν, παρατηρήθηκε υπεροχή των ανδρών (51,9%), υψηλότερη επίπτωση στην τρίτη και τέταρτη δεκαετία (22,25% κάθε μία), μέση ηλικία  $40,24 \pm 23,02$  έτη (εύρος από 8 έως 92 έτη), ενώ η άνω γνάθος εμφάνιζε ελαφρά προτίμηση έναντι της κάτω (51,9% έναντι 44,4%).

## ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Ο ΕΚΟΟ έχει ανευρεθεί σε όλο το φάσμα των ηλικιών, από ενός ως 82 ετών<sup>4,11</sup>. Σε ανασκόπηση 141 περιπτώσεων κεντρικών και περιφερικών ΕΚΟΟ οι Shear και Speight<sup>9</sup> βρήκαν υψηλότερη συχνότητα εμφάνισης στη δεύτερη δεκαετία, ενώ σε μελέτη 215 περιπτώσεων, ο Buchner<sup>7</sup> παρατήρησε δίκορφη ηλικιακή κατανομή, με υψηλότερες κορυφές στη δεύτερη δεκαετία και έκτη έως έβδομη δεκαετία. Το τελευταίο εύρημα θεωρήθηκε ενδεικτικό της παρουσίας στο υλικό δύο διαφορετικών νοσολογικών οντοτήτων. Είναι χαρακτηριστικό ότι οι ΕΚΟΟ που σχετίζονται με οδοντώματα τείνουν να προσβάλλουν νεότερους ασθενείς, με μέσο όρο ηλικίας τα 17 έτη<sup>4,5,7,11,28</sup>.

Στην παρούσα μελέτη, στο σύνολο των 27 περιπτώσεων κεντρικών ΕΚΟΟ, η υψηλότερη επίπτωση της βλάβης ήταν στην τρίτη και τέταρτη δεκαετία, και η μέση ηλικία ήταν 40,24 έτη. Σημειώνεται η παρουσία στο υλικό αυτής της μελέτης, περίπτωσης ΕΚΟΟ σε ασθενή 92 ετών.

Αναφορικά με το φύλο, η διαφορά που παρατηρείται στη βιβλιογραφία θεωρείται αμελητέα<sup>9,13,29-32</sup>. Ισόποση κατανομή εμφανίστηκε και στη μελέτη των περιφερικών ΕΚΟΟ από τους Kaugars και συν.<sup>33</sup>. Στην παρούσα μελέτη, στο υλικό του ΕΚΠΑ οι γυναίκες υπερτερούσαν ελαφρώς των ανδρών (57,1% και 42,9%, αντίστοιχα), και στο υλικό του UM οι άνδρες ισχυρώς έναντι των γυναικών (66,6% έναντι 33,3%). Έτσι, συνολικώς στο δείγμα καταγράφηκε σχεδόν ισόποση κατανομή ανδρών/γυναικών. Οι διαφορές μεταξύ των δύο ομάδων που μελετήθηκαν δεν μπορούν να ερμηνευθούν, καθώς σε προηγούμενες μελέτες δεν φαίνεται να υπάρχουν επιδημιολογικές διαφορές σε σχέση με τη χώρα προέλευσης των ασθενών.

Στις περιπτώσεις που μελετήθηκαν στην παρούσα εργασία, συνολικά η ΕΚΟΟ εμφάνιζε ελαφρά προτίμηση για την άνω γνάθο, χωρίς να είναι δυνατόν να προσδιοριστεί η σχέση με συγκεκριμένη ανατομική περιοχή. Η προτίμηση αυτή προκύπτει κυρίως από το δείγμα του UM και έχει αναφερθεί και σε προηγούμενες μελέτες<sup>34</sup>. Σαφής προτίμηση για την άνω γνάθο έχει περιγραφεί στις μελέτες των Nagao και συν.<sup>22</sup> από την Ιαπωνία, και Li και Yu<sup>30</sup> από την Κίνα. Οι Freedman και συν.<sup>20</sup> παρατήρησαν πως η βλάβη εντοπιζόταν στην άνω γνάθο στο 70% των ασθενών που ήταν νεώτεροι των 40 ετών, και στην κάτω γνάθο στο 80% των ασθενών που ήταν μεγαλύτεροι των 40 ετών. Ανάλογη διαφορά δεν προέκυψε από τις περιπτώσεις της παρούσας μελέτης.

Ακτινογραφικά, ο κεντρικός ΕΚΟΟ απεικονίζεται συνήθως ως μονόχωρη ακτινοδιαύγαση με σαφή όρια<sup>11,28,32</sup>. Σπάνια μπορεί να έχει τη μορφή πολύχωρης βλάβης ή να εμφανίζει ανώμαλα και ασαφή όρια<sup>32,35,36</sup>. Στο εσωτερικό της βλάβης, στο 1/3 έως 1/2 των περιπτώσεων, παρατηρούνται ακτινοσκιερό σχηματισμοί που παριστούν ενασβεστιώσεις και αποτελούν σημαντικό διαφορογνωστικό χαρακτηριστικό του ΕΚΟΟ<sup>1,2</sup>. Στις 16 περιπτώσεις των Yoshida και συν.<sup>37</sup> ακτινοσκιερό υλικό παρατηρήθηκε στο σύνολο των περιπτώσεων. Στο 1/3 περίπου των περιπτώσεων, η βλάβη σχετίζεται με δόντι το οποίο δεν έχει ανατείλει, συχνότερα κυνόδοντα<sup>4</sup>, ενώ μπορεί να παρατηρηθεί και απορρόφηση ριζών ή μετακίνηση παρακείμενων δοντιών<sup>3,4,11,32,35,38,39</sup>. Σημειώνεται, πως καθώς ο ΕΚΟΟ μπορεί να συνυπάρχει με άλλους οδοντογενείς όγκους<sup>32</sup>, η ακτινογραφική εικόνα είναι δυνατόν να περιπλέκεται και να προσομοιάζει με οδόντωμα, αδαμαντινοβλάστωμα, υπολειμματική κύστη και άηλο οδοντογενή όγκο ή κύστη.

Στους 13 ΕΚΟΟ από το Πανεπιστήμιο Αθηνών που αξιολογήθηκαν ακτινογραφικά στην παρούσα μελέτη, η ακτινογραφική εικόνα αναφερόταν ως διαύγαση (78,5%) και μόνο σε δύο περιγράφονταν ακτινοσκιεροί σχηματισμοί στο εσωτερικό της διαύγασης. Αν και δεν αναφερόταν σχέση με έγκλειστο δόντι, απορρόφηση ή μετακίνηση παρακειμένων δοντιών, πρέπει να σημειωθεί πως τα στοιχεία προέρχονταν από την περιγραφή της ακτινογραφικής εικόνα σε παραπεμπτικά ιστολογικής εξέτασης, η οποία δεν είναι κατά κανόνα λεπτομερής και αναλυτική. Επιπλέον, τα στοιχεία αυτά συνηγορούν υπέρ της επικρατούσας άποψης για τη δυσκολία διαφορικής διάγνωσης του ΕΚΟΟ από άλλες οδοντογενείς βλάβες. Στην ακτινογραφική διαφορική διάγνωση περιλαμβάνονται κυρίως ο ενασβεστιούμενος επιθηλιακός οδοντογενής όγκος (όγκος του Pindborg), ο αδενωματοειδής οδοντογενής όγκος, το αδαμαντινοβήλαστικό ινοοδόντωμα, και το οδόντωμα<sup>40</sup>.

Οι ακτινογραφικές διαστάσεις του ΕΚΟΟ στους περισσότερους κυμαίνονται από 2 μέχρι 4 εκατοστά στη μεγαλύτερη διάσταση, όπως παρατηρήθηκε και στην παρούσα μελέτη, ενώ έχουν περιγραφεί και όγκοι με μέγιστη διάσταση έως και 15 εκατοστά<sup>4,15</sup>. Οι διαστάσεις αυτές είναι κατά κανόνα ικανές να προκαλέσουν έκπτυξη των οστικών πετάλιων και διόγκωση της γνάθου<sup>35</sup>.

Θεραπεία εκλογής του ΕΚΟΟ είναι η χειρουργική εκπυρήνιση και η απόξεση της οστικής κοιλότητας, όταν πρόκειται για ενδοοστική βλάβη<sup>4,11,41,42</sup>. Οι υποτροπές είναι σπάνιες και έως το 2004 είχαν τεκμηριωθεί 8 περιπτώσεις στη διεθνή βιβλιογραφία<sup>1,43-45</sup>. Έχει, επίσης, αναφερθεί και η επιτυχής χρήση της μαρσιποποίησης, ακολουθούμενης από εκπυρήνιση σε δεύτερο χρόνο, σε μεγάλης έκτασης ενδοοστικού ΕΚΟΟ<sup>42</sup>. Όταν η βλάβη σχετίζεται με άηλους οδοντογενείς όγκους, η θεραπεία και η πρόγνωση είναι η ίδια με αυτή του σχετιζόμενου οδοντογενούς όγκου<sup>4,7</sup>.

Συμπερασματικά, στο υλικό της παρούσας μελέτης ο ΕΚΟΟ εμφανιζόταν συχνότερα στην τρίτη και τέταρτη δεκαετία, με μέση ηλικία εμφάνισης τα 40,24 έτη. Υπήρχε ελαφρά υπεροχή των ανδρών έναντι των γυναικών, και της άνω γνάθου έναντι της κάτω. Στην πλειονότητα των περιπτώσεων η βλάβη απεικονιζόταν ακτινογραφικά ως απλή διαύγαση και οι διαστάσεις της κυμαίνονταν συχνότερα από 2 έως 4 εκατοστά.

Η διαφορά των 10 ετών στη μέση ηλικία, που προέκυψε μεταξύ των δύο δειγμάτων, δεν αξιολογήθηκε, καθώς δεν ήταν στατιστικώς σημαντική. Σημειώνεται η παρουσία στο υλικό αυτής της μελέτης περίπτωσης ΕΚΟΟ σε ασθενή 92 ετών.

## SUMMARY

N. PROUNTZOS, K. KATOUMAS,  
K.I. TOSIOS, I.G. KOUTLAS,  
A. SKLAVOUNOU-ANDRIKOPOULOU

### CALCIFYING EPITHELIAL ODONTOGENIC TUMOR. A RETROSPECTIVE CLINICAL STUDY OF 27 CASES.

STOMATOLOGIA 2011,68(3):

The calcifying odontogenic cyst (COC) or Gorlin cyst is an unusual odontogenic lesion, representing 2% of all odontogenic lesions of the jaws, with variable clinical behavior and microscopic features. In the World Health Organization's most recent classification of odontogenic lesions COC is considered as a benign cystic neoplasm and is being renamed as calcifying cystic odontogenic tumor (CCOT). The aim of the present retrospective study was to describe the main clinical and radiographic features of a case series of 27 CCOTs and compare them with those of previous studies. Data regarding age, gender, anatomic location, radiographic appearance and maximum radiographic size of the lesions were recorded from the biopsy report forms. It was shown that the peak incidence of CCOT was between the 3rd and 4th decade of life, with a mean age 40.24 years. A slight male predilection was found, as well as a slight preference for the maxilla. The majority of the cases presented as radiolucencies, ranging from 2cm to 4cm in their maximum diameter.

KEY WORDS: Jaw tumors, Odontogenic tumors, Calcifying epithelial odontogenic cyst, Host cells.

## ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

1. GORLIN RJ, PINDBORG JJ, CLAUSEN FP et al. The calcifying odontogenic cyst. A possible analogue of the cutaneous calcifying epithelioma of Malherbe. An analysis of fifteen cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1962,15: 1235
2. GOLD L. The keratinizing and calcifying odontogenic cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1963,16: 1414
3. ALTINI M, FARMAN AG. The calcifying odontogenic cyst. Eight new cases and a review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975,40: 751-759
4. NEVILLE B, DAMM D, ALLEN C, BOUQOT J. Oral and Maxillofacial Pathology. 2nd ed. *Saunders, 2002: 604-607*
5. HONG SP, ELLIS GL, HARTMAN KS. Calcifying odontogenic cyst. A review of ninety-two cases with reevaluation of their nature as cysts or neoplasms, the nature of ghost cells, and subclassification. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1991,72: 56-64
6. PRAETORIUS F, LEDESMA-MONTES C. Calcifying Cystic Odontogenic Tumour. In: BARNES L, EVESON JW, REICHART P, SIDRANSKY D (eds). World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. *IARC Press, Lyon, 2005: 313*
7. BUCHNER A. The central (intraosseous) calcifying odontogenic cyst: an analysis of 215 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 1991,49: 330-339
8. ERASMUS JH, THOMPSON IO, Van RENSBURG LJ, Van Der WESTHUIJZEN AJ. Central calcifying odontogenic cyst. A review of the literature and the role of advanced imaging techniques. *Dentomaxillofac Radiol* 1998,27: 30-35
9. SHEAR M, SPEIGHT P. Cysts of the Oral and Maxillofacial Regions. 4th ed. *Blackwell Munksgaard, 2007*
10. VERBIN R, BARNES L. Cysts and Cyst-like Lesions of the Oral Cavity, Jaws, and Neck. In: BARNES L (ed). Surgical Pathology of the Head and Neck. Vol 3. 2nd ed. *Marcel Dekker, New York, 2001: 1437-555*
11. ΑΓΓΕΛΟΠΟΥΛΟΣ Α, ΠΑΠΑΝΙΚΟΛΑΟΥ Σ, ΑΓΓΕΛΟΠΟΥΛΟΥ Ε. Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία. *Λίτσας, Αθήνα, 2000: 504-506*
12. BUCHNER A, MERRELL PW, HANSEN LS et al. Peripheral (extraosseous) calcifying odontogenic cyst: a review of forty-five cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1991,72: 65-70
13. JOHNSON A, FLETCHER M, GOLD L, CHEN S-Y. Calcifying odontogenic cyst: a clinicopathologic study of 57 cases with immunohistochemical evaluation for cytokeratin. *J Oral Maxillofac Surg* 1997,55: 679-683
14. SOM PM, BRANDWEIN MS. Tumors and Tumor-like Conditions. In: SOM PM, CURTIN HD (ed). Head and Neck Imaging. Vol 1. 4th ed. *Mosby, St. Louis, 2003: 352*
15. LEDESMA-MONTES C, GORLIN RJ, SHEAR M, PRAETORIUS F, MOSQUEDA-TAYLOR A, ALTINI M et al. International collaborative study on ghost cell odontogenic tumours: calcifying cystic odontogenic tumour, dentinogenic ghost cell tumour and ghost cell odontogenic carcinoma. *J Oral Pathol Med* 2008,37: 302-308
16. ORSINI G, FIORONI M, RUBINI C, PIATTELLI A. Peripheral calcifying odontogenic cyst. *J Clin Periodontol* 2002,29: 83-86
17. CAWSON R, BINNIE W, SPEIGHT P, BARRETT AW, WRIGHT J. Luca's Pathology of Tumors of the Oral Tissues. *Churchill-Livingstone, London, 1998*
18. ODELL EW, MORGAN PR. Biopsy Pathology of the Oral Tissues. *Chapman and Hall Medical, London, 1998*
19. SEYEDMAJIDI M, FEIZABADI M. Peripheral calcifying odontogenic cyst. *Arch Iran Med* 2009,12: 309-312
20. FREEDMAN PD, LUMERMAN H, GEE JK. Calcifying odontogenic cyst. A review and analysis of seventy cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975,40: 93-106
21. LELLO GE, MAKEK M. Calcifying odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1986,15: 637-644
22. NAGAO T, NAKAJIMA T, FUKUSHIMA M, ISHIKI T. Calcifying odontogenic cyst: a survey of 23 cases in the Japanese literature. *J Maxillofac Surg* 1983,11: 174-179
23. PRAETORIUS F, HJORTING HANSEN E, GORLIN RJ, VICKERS RA. Calcifying odontogenic cyst. Range, variations and neoplastic potential. *Acta Odontol Scand* 1981,39: 227-240
24. RAJKUMAR K, KAMAL K, SATHISH MR, LEENA S. Calcifying odontogenic cyst. *J Oral Maxillofac Pathol* 2004,8: 99-103
25. LUCCHESI A, SCIVETTI M, PILOLLI GP, FAVIA G. Analysis of ghost cells in calcifying cystic odontogenic tumors by confocal laser scanning microscopy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007,104: 391-394
26. MIMURA M, TANAKA N, KIMIJIMA Y, ICHINOSE S, SASAKI K, AMAGASA T. An ultrastructural study of calcifying odontogenic cyst, especially calcified material. *Med Electron Microsc* 2002,35: 109-116
27. SATOMURA K, NAKANISHI H, FUJISAWA K, HAYASHI E, NAGAYAMA M. Initiation of ectopic epithelial calcification in a calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol Med* 1999,28: 330-335

28. NEVILLE BW, DAMM DD, ALLEN CM. Oral and Maxillofacial Pathology. *Saunders, Philadelphia, 1995: 506*
29. FREGNANI ER, PIRES FR, QUEZADA RD, SHIH LEM, VARGAS PA, De ALMEIDA OP. Calcifying odontogenic cyst: clinicopathological features and immunohistochemical profile of 10 cases. *J Oral Pathol Med 2003,32: 163-170*
30. LI TJ, YU SF. Clinicopathological spectrum of the so-called calcifying odontogenic cysts: a study of 21 intraosseous cases with reconsideration of the terminology and classification. *Am J Surg Pathol 2003,27: 372-384*
31. MOLERI AB, MOREIRA LC, CARVALHO JJ. Comparative morphology of 7 new cases of calcifying odontogenic cysts. *J Oral Maxillofac Surg 2002,60: 689-696. Review*
32. IIDA S, FUKUDA Y, UEDA T, AIKAWA T, ARIZPE JE, OKURA M. Calcifying odontogenic cyst: radiologic findings in 11 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2006,101: 356-362*
33. KAUGARS CC, KAUGARS GE, DEBIASI GF. Extraosseous calcifying odontogenic cyst: report of case and review of literature. *J Am Dent Assoc 1989,119: 715-718*
34. FEJERSKOV O, KROGH J. The calcifying ghost cell odontogenic tumor - or the calcifying odontogenic cyst. *J Oral Pathol 1972,1: 273-287*
35. ΑΓΓΕΛΟΠΟΥΛΟΣ Α, ΣΠΥΡΟΠΟΥΛΟΣ Ν, ΤΣΙΧΛΑΚΗΣ Κ. Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία. *Λίτσας, Αθήνα, 2001: 468-469, 503*
36. MCCOY BP, O'CAROLL MK, HALL JM. Carcinoma arising in a dentinogenic ghost cell tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1992,74: 371-378*
37. YOSHIDA M, KUMAMOTO H, Ooya K, MAYANAGI H. Histopathological and immunohistochemical analysis of calcifying odontogenic cysts. *J Oral Pathol Med 2001,30: 582-588*
38. DEVILIN H, HORNER K. The radiographic features of calcifying odontogenic cyst. *Br J Radiol 1993,66: 403-407*
39. TANIMOTO K, TOMITA S, AOYAMA M, FURUKI Y, FUJITA M, WADA T. Radiographic characteristics of the calcifying odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg 1988,17: 29-33*
40. PINDBORG JJ, KRAMER IRH, TORLONI H. Calcifying odontogenic cyst. Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts and allied lesions. WHO International Histological Classification of Tumors. *World Health Organization, Geneva, 1971: 28*
41. SHAMASKIN RG, SVIRSKY JA, KAUGARS GE. Intraosseous and extraosseous calcifying odontogenic cyst (Gorlin cyst). *J Oral Maxillofac Surg 1989,47: 562-565*
42. SOUZA LN, SOUZA AC, GOMES CC, LOYOLA AM, DURIGHETTO AF Jr, GOMEZ RS et al. Conservative treatment of calcifying odontogenic cyst: report of 3 cases. *J Oral Maxillofac Surg 2007,65: 2353-2356*
43. SLOOTWEG PJ, KOOLE R. Recurrent calcifying odontogenic cyst (case report). *J Maxillofac Surg 1980,8: 143-145*
44. STOELINGA PJ, BRONKHORST FB. The incidence, multiple presentation and recurrence of aggressive cysts of the jaws. *J Craniomaxillofac Surg 1988,16: 184-195*
45. SWINSON TW. A clinico-pathological comparison of the ameloblastoma with the calcifying odontogenic cyst. *Br J Oral Surg 1976,13: 217-229*

---

**ΔΙΕΥΘΥΝΣΗ ΕΠΙΚΟΙΝΩΝΙΑΣ:**

Νίκος Προύντζος  
Καρνεάδου 40-42  
106 76 Κοθωνάκι  
ΑΘΗΝΑ