Observation clinique

Tumeur maligne ou kératokyste ? A propos d'un cas

Bertrand Baumann^{1,*}, Caroline Ridoux², Véronique Lindner³, Pierre Saez²

¹ Service d'Odontologie, Centre hospitalier Emile Muller, Mulhouse, France

² Service d'ORL, Centre hospitalier Emile Muller, Mulhouse, France

³ Service de Pathologie, Centre hospitalier Emile Muller, Mulhouse, France

(Reçu le 29 octobre 2012, accepté le 11 novembre 2012)

Mots clés :
kératokyste
odontogène /
tomodensitométrie /
tumeur

Résumé – La découverte radiologique fortuite d'une lésion radiotransparente envahissant les maxillaires représente souvent un déficit diagnostique pour le clinicien. Cet article présente le cas d'un patient adressé initialement pour une tumeur maligne. Les étapes de la prise en charge sont détaillées depuis la consultation jusqu'au diagnostic final de kératokyste. Toutes les étapes du traitement sont présentées et les différentes possibilités thérapeutiques envisagées. Le diagnostic clinique et radiologique entre une tumeur maligne et un kératokyste est parfois difficile ; pour cette raison, le kératokyste odontogène est de plus en plus considéré comme une néoplasie kystique bénigne.

Key words:
odontogenic
keratocyst /
computerized
tomography / tumor

Abstract – Malignant tumor or keratocyst? A case report. Fortuitous discovery of a maxillary lesion on radiologic imagery is a challenge to make the etiologic diagnosis. The purpose of this article is to present a case of a patient with a suspicion of a malignant maxillary tumor. All steps are detailed from the first consultation to the final diagnose of keratocyst. All points of therapeutic coverage are discussed. The clinic and radiologic items of a malignant tumor and a kercyst can be difficult to distinguish and that is why in literature the keratocyst is more and more consider as a cystic benign neoplasia.

La séméiologie clinique et radiologique peu spécifique associée à la diversité histologique des tumeurs des maxillaires font de la pathologie oro-faciale un véritable défi diagnostique. La convergence des données cliniques et d'imageries sont une aide indispensable pour l'anapathologiste pour identifier précisément une lésion ; de ce résultat histologique découlera l'attitude thérapeutique.

L'objectif de cet article sera de présenter le cas d'un patient pour lequel une volumineuse lésion de l'angle mandibulaire droit a été diagnostiquée et initialement étiquetée comme métastase osseuse. Nous détaillerons les étapes du diagnostic et la prise en charge.

Observation

Un homme de 81 ans est adressé au service d'Odontologie par son oncologue dans le but de réaliser une biopsie osseuse après la découverte fortuite d'une lésion envahissant l'angle et le ramus mandibulaires droits. C'est l'apparition d'une hypoesthésie labio-mentonnaire homolatérale qui a rendu

attentif le patient et qui a conduit le confrère à la prescription d'une radiographie panoramique (Fig. 1). L'oncologue évoque une possible métastase osseuse dans un contexte de lymphome du manteau splénique diagnostiqué 3 ans auparavant et traité par R-CVP : Mabthera®, Endoxan®, Oncovin®, Prednisolone® (3 cures espacées chacune de 22 jours).

Dans les antécédents, on note : un infarctus de myocarde antéro-septal, une hypercholestérolémie, une broncho-pneumonie chronique obstructive avec surinfection pulmonaire (il y a 6 ans), un anévrisme de l'aorte opéré, deux stents, une embolie pulmonaire (il y a 6 ans), un diabète et un tabagisme stoppé il y a 6 ans. Le frère du patient est décédé d'une leucémie quelques années auparavant.

Traitement

En raison de l'âge du patient, du risque non négligeable de fracture mandibulaire et de l'étendue de la lésion, l'anesthésie générale a semblé plus indiquée. Une approche chirurgicale initiale conservatrice et la moins mutilante possible a été

* Correspondance : baumannb@ch-mulhouse.fr

Fig. 1. Radiographie panoramique initiale.
Fig. 1. Initial panoramic radiography.

Fig. 2. Reconstruction volumique 3D de la mandibule.
Fig. 2. 3D volume rendering of the mandible.

envisagée afin de permettre une éventuelle ré-intervention dans de bonnes conditions si le diagnostic de métastase était confirmé.

La reconstruction tridimensionnelle pré-opératoire réalisée à l'issue de l'examen tomodensitométrique (Fig. 2) a permis de bien visualiser les zones de lyse osseuse et d'établir avec précision le tracé d'incision pour la levée des lambeaux.

L'incision qui a suivi la ligne oblique externe de la mandibule allant du foramen mentonnier droit jusqu'au sommet de l'apophyse coronoïde, a donné une bonne exposition du site opératoire. Compte tenu de l'envahissement des tissus mous, une exérèse de la muqueuse buccale en regard a été réalisée avec une marge de 5 mm [3, 13, 16]. La présence de nombreuses cloisons de refend a rendu le curetage difficile ; l'ostéotomie de ces cloisons a été indispensable pour effectuer un clivage satisfaisant [9]. Afin d'adapter au mieux le

Fig. 3. Situation opératoire après curetage de la lésion.
Fig. 3. Operating view after obviously of the mandible.

geste opératoire, un examen anatomopathologique extemporané a été demandé pour poser un premier diagnostic : il s'agissait d'un kyste bordé par un revêtement malpighien sans atypie et surmonté par une minime couche de parakératose ; l'ensemble était en faveur d'un kyste odontogène de type kératokyste. Après le curetage de la lésion, la corticale interne de la mandibule en regard du kyste a été abrasée à la fraise à os afin d'éliminer les îlots cellulaires résiduels éventuels, supra et intra-osseux [3, 9, 15] (Fig. 3). Plusieurs rinçages à la Bétadine® Buccale ont été effectués avant de fermer hermétiquement le site au moyen d'un lambeau jugal. Une sonde naso-gastrique a été mise en place pendant une semaine pour éviter la sollicitation des lambeaux et prévenir au mieux le risque de contamination et de surinfection.

Discussion

Dans ce contexte familial et individuel à risque, l'hypothèse d'une lésion néoplasique était fort probable mais l'analyse de l'examen panoramique mettait en doute ce premier diagnostic. Les contours nets de la lésion et l'image multiloculaire associés la présence d'un liséré d'ostéocondensation périphérique ne permettaient pas d'évoquer formellement une lésion cancéreuse sans envisager d'autres affections bénignes : un améloblastome, un kératokyste...

La mandibule constitue un site rare pour le développement de métastase : ces métastases représentent 1 % de l'ensemble des tumeurs malignes de la cavité buccale [7, 11] avec une localisation plus fréquente dans la région molaire [7, 18] et une prévalence majorée chez les sujets de plus de 50 ans [5, 6]. L'abondante vascularisation de cette région et

Fig. 4. Radiographie post-opératoire à 6 mois.
Fig. 4. Panoramic radiography 6 months after surgery.

sa richesse en cellules hématopoïétiques peuvent expliquer cette localisation [6, 12].

Classiquement, l'hypoesthésie ou les paresthésies labio-mentonnières constituent des signes neurologiques qui doivent faire suspecter une lésion néoplasique ; elles sont rarement rapportées avec une affection bénigne comme un kératokyste (4, 10, 14).

Le diagnostic radiologique différentiel doit faire envisager toutes les lésions radiotransparentes polygéoïdiques de la mandibule : l'améloblastome, le kératokyste, le myxome odontogène, le fibrome, le kyste résiduel, l'angiome osseux, le kyste anévrysmal [9]. Seul l'examen histologique permet de trancher avec certitude. Le traitement du kératokyste est principalement chirurgical ; du fait de son potentiel récidivant, l'énucléation kystique est généralement associée à un curetage osseux [1]. Cette méthode est considérée comme « l'étalon d'or » en la matière [2]. La résection osseuse avec une marge de sécurité de 0,5 à 1 cm est réservée aux patients présentant des formes multiloculaires étendues [17].

L'ostéotomie sagittale non interruptrice de la branche mandibulaire n'a pas été le mode opératoire retenu compte tenu de l'âge avancé du patient et de l'étendue sous-condylienne de la lésion rendant impossible toute reconstruction en cas de fracture per ou postopératoire (Fig. 4). De plus, le risque de récurrence reste modéré lorsque le traitement chirurgical associe l'énucléation et le curetage chirurgical de l'os périphérique : 18,8 % selon l'étude de Kaczmarzyk et al. en 2012 [8].

Conclusion

Les progrès dans les domaines de l'imagerie, de l'histologie, de la biologie cellulaire et moléculaire ainsi qu'en chirurgie permettent aujourd'hui une prise en charge plus individualisée et plus adaptée de chaque patient. En revanche, la plupart de ces examens complémentaires ne représentent qu'une aide au diagnostic et ne se substituent aucunement à l'examen histologique de chaque pièce opératoire.

Dans le cas clinique rapporté, différentes hypothèses diagnostiques ont été envisagées et certains éléments orientés vers une affection maligne. Dans de cette situation, comme dans de nombreuses autres en chirurgie orale, il est indispensable, avant d'envisager la prise en charge d'un malade présentant une lésion suspecte, de confronter l'avis des différents spécialistes afin d'optimiser les chances de réussite et de proposer à chaque patient une solution personnalisée.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Bell RB, Dierks EJ. Treatment options for the recurrent odontogenic keratocyst. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2003;15:429-46.
2. Bornstein MM, Filippi A, Altermatt HJ, Lambrecht T, Buser D. Le kératokyste odontogène : kyste odontogène ou tumeur bénigne ? *Rev Mens Suisse Odontostomatol* 2005;115:123-8.
3. Bradley PF, Fischer AD. The cryosurgery of bone. An experimental and clinical assessment. *Br J Oral Surg* 1975;13:111-27.
4. Brannon RB. The odontogenic keratocyst. A clinicopathologic study of 312 cases. Part I. Clinical features. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1976;42:54-72.
5. Hirshberg A, Leibovich P, Buchner A. Metastases to the oral mucosa: analysis of 157 cases. *J Oral Pathol Med* 1993;22:385-90.
6. Hirshberg A, Leibovich P, Buchner A. Metastatic tumors to the jaws: analysis of 390 cases. *J Oral Pathol Med* 1994;23:337-41.
7. Irani S, Moshref M, Lofti A. Metastasis of a gastric adenocarcinoma to the mandible. *Oral Oncol Extra* 2004;40:85-7.
8. Kaczmarzyk T, Mojsa I, Stypulkowska J. A systematic review of the recurrence rate for keratocystic odontogenic tumour in relation to treatment modalities. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2012;41:756-67.
9. Le Toux G, Ales RP, Mounier C. Approche chirurgicale des kératokystes odontogènes : à propos de deux cas cliniques. *Med Buccale Chir Buccale* 2001;7:33-41.
10. Lovas JG. Cysts of the jaws: a review. *J Can Dent Assoc* 1991;57:209-12.
11. Meyer I, Shklar G. Malignant tumors metastatic to mouth and jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1965;20:350-62.

12. Moorman WC, Shafer WG. Metastatic carcinoma of the mandible. *J Oral Surg* 1954;12:205-9.
13. Panders AK, Hadders HN. Solitary keratocysts of the jaws. *J Oral Surg* 1969;27:931-5.
14. Partridge M, Towers JF. The primordial cyst (odontogenic keratocyst): its tumour-like characteristics and behaviour. *J Oral Maxillofac Surg* 1987;25:271-9.
15. Reisman F. Surgical management of the odontogenic keratocyst: conservative approach. *J Oral Maxillofac Surg* 1994;52:960-3.
16. Scharffetter K, Balz-Hermann C, Lagrange W, Kroberg W, Mittermayer C. Proliferation kinetics-study of the growth of keratocysts. Morphofunctionnel exploration of recurrences. *J Craniomaxillofac Surg* 1989;17:223-6.
17. Tarragano. H, Missika. P, Illouz B, Roche Y. Traitement des kystes, des tumeurs et pseudo-tumeurs bénignes des maxillaires (pp 139-148). In : La chirurgie orale. Edition CdP, Rueil-Malmaison, France, 2010.
18. Tei K, Notami K, Kida M. Metastatic tumors of the mouth and jaws: report of 6 cases. *Jpn J Head Neck Cancer* 1991;17:150