Observation clinique

Kératokystes des maxillaires : discordance entre les diagnostics clinique, radiologique et anatomopathologique. A propos de deux cas

Simohammed Bouzoubaa*, Mohamed Mokrane Khazana, Ihsane Ben Yahya

Service d'Odontologie chirurgicale, CCTD, Casablanca, Maroc

(Reçu le 28 janvier 2013, accepté le 18 février 2013)

Mots clés :
kératokyste
parakératosique /
kératokyste
orthokératosique /
kyste inflammatoire /
kyste dentigère

Key words:
parakeratotic
keratocyst /
orthokeratotic
keratocyst /
dentigerous cyst /
inflammatory cyst

Résumé – Les kératokystes odontogènes des maxillaires se développent à partir de la lame dentaire, ou de ses vestiges, et de l'assise basale de l'épithélium buccal. Ils surviennent surtout lors de la deuxième et la troisième décades. Ils sont plus fréquents chez l'homme que chez la femme, et ils siègent préférentiellement à la mandibule (65 % à 80 % des cas), dans la région de l'angle mandibulaire.

Ce travail rapporte deux cas de kératokystes. L'un est un kératokyste maxillaire évoquant, à l'examen clinique et radiologique, un kyste inflammatoire en raison de ses rapports avec 11, 21 et 22 qui sont nécrosées. L'autre est un kératokyste mandibulaire évoquant un kyste dentigère car il est associé à une 43 incluse.

Ces 2 cas permettent d'illustrer la difficulté de diagnostic à partir des éléments cliniques et radiologiques et d'insister sur l'intérêt de l'examen anatomopathologique.

Abstract – Keratocysts of the jaws: discordance between clinical, radiological and pathological diagnosis. Two cases report. Odontogenic keratocysts of the jaws are derived from the dental lamina, or its remnants, and the basal layer of the oral epithelium. They occur often during the second and third decades. They are more common in men than in women, and they sit preferentially in the mandible (65% to 80% of cases), in the vicinity of the mandibular angle.

We report two cases of keratocysts. The first case is a maxillary keratocyst referring, to the clinical and radiological examination, an inflammatory cyst because its relations with the 11, 21 and 22 necrotic. The second case is a mandibular keratocyst evoking a dentigerous cyst because it is associated with the 43 included.

Through these two cases, we want to show the difficulty of diagnosis based on clinical and radiological aspect and to insist on the importance of histological examination.

Les kystes des maxillaires sont des lésions intraosseuses, le plus souvent d'origine odontogène, possédant alors une structure histologique particulière : la cavité kystique est bordée par un épithélium, kératinisé ou non, et son contenu est liquide, semi-liquide ou solide.

Le diagnostic de ces lésions n'est pas toujours facile, même si elles présentent des caractères cliniques et radiologiques et des particularités propres à chaque type de kyste. Le diagnostic basé sur l'expérience clinique peut induire en erreur, seul le diagnostic anatomopathologique peut assurer le diagnostic de certitude.

Sur le plan thérapeutique, la chirurgie reste de règle mais le pronostic diffère d'une lésion à l'autre.

* Correspondance : simobz@hotmail.com

1^{er} cas

Une femme, âgée de 29 ans, est venue consulter pour une tuméfaction naso-génienne gauche, haute, indolore, générant une asymétrie faciale depuis 1 an (Fig. 1). L'examen clinique révélait une tuméfaction de consistance ferme, bien limitée et non douloureuse, et l'absence d'adénopathies cervico-faciales. L'examen endobuccal montrait un comblement du vestibule supérieur para-médian gauche et une tuméfaction palatine antérieure gauche, avec une muqueuse de recouvrement d'aspect normal. Les dents antérieures étaient déplacées. À la palpation, on notait une soufflure des tables vestibulaire et palatine. Les tests de vitalité étaient négatifs pour 11, 21 et 22 (Fig. 2a et 2b).

Fig. 1. Vue exobuccale : tuméfaction génienne haute gauche.
Fig. 1. Exobuccal view: high left maxillary swelling.

L'orthopantomogramme montrait une image radioclaire d'allure kystique, bien limitée, qui s'étendait de la 12 à la 24 (Fig. 3). Le Dentascan précisait que cette lésion entraînait une lyse des corticales interne et externe et qu'elle présentait des rapports intimes avec les fosses nasales et le sinus maxillaire gauche (Fig. 4a et 4b). L'ensemble de ces éléments faisait évoquer un kyste inflammatoire.

La prise en charge de cette patiente a consisté à réaliser un traitement canalaire sur 11, 21 et 22 et une kystectomie (Fig. 5). L'examen anatomopathologique a conclu à un kératokyste type parakératosique (Fig. 6). Au 3^e mois postopératoire, le contrôle clinique montrait une bonne cicatrisation muqueuse ; au 12^e mois postopératoire, le contrôle radiologique montrait un début de cicatrisation osseuse (Fig. 7 et 8).

2^e cas

Un homme, âgé de 35 ans, est venu consulter pour une tuméfaction génienne droite, basse, indolore, générant une asymétrie faciale depuis 2 ans (Fig. 9). À l'examen exobuccal, la tuméfaction bien limitée et douloureuse à la palpation avait une consistance ferme. Il n'y avait pas d'adénopathies cervico-faciales ni de signe de Vincent. À l'examen endobuccal, on observait un comblement vestibulaire en regard de 44, 45 et 46, avec une muqueuse de recouvrement d'aspect normal (Fig. 10). À la palpation, la tuméfaction était molle. 44 et 45 étaient linguo-versées et le test de vitalité positif sur 44, 45 et 46.

L'orthopantomogramme montrait une image radioclaire bien limitée qui refoulait la 43 incluse (Fig. 11). Le Dentascan confirmait qu'il s'agissait bien d'une image hypodense, bien limitée, qui soufflait la corticale externe et qui refoulait le nerf

Fig. 2a et 2b. Vue endobuccale : comblement vestibulaire et tuméfaction palatine en regard de 21, 22 et 23 qui sont en palato-version.

Fig. 2a and 2b. Intraoral view: vestibular and palatine swellings near to the 21, 22 and 23 displaced in the palate position.

Fig. 3. Radiographie panoramique : image radioclaire, d'aspect kystique, bien limitée, allant de 12 à 24.

Fig. 3. Panoramic radiograph: image of radiolucent cystic appearance, well limited, extended of 12 to 24.

alvéolaire inférieur vers le bas. Cette image était associée à une rhizalysse sur 44, 45 et 46 (Fig. 12a et 12b). L'ensemble des éléments cliniques et radiologiques faisaient évoquer un kyste dentigène.

Fig. 4a et 4b. Dentascan (a. coupe axiale ; b. coupe frontale) : lésion hypodense bien limitée qui lyse les corticales interne et externe et qui présente des rapports étroits avec les fosses nasales et le sinus maxillaire gauche.

Fig. 4a and 4b. Dentascan (a. axial slice; b. coronal slice): hypodense lesion well defined that breaks the internal and external corticals and who has intimate relations with nasal fossa and left maxillary sinus.

Le traitement a comporté une kystectomie avec extraction de 43, 44, 45 et 46. L'examen anatomopathologique a conclu qu'il s'agissait d'un kératokyste type orthokératosique (Fig. 13). Au 3^e mois postopératoire, le contrôle clinique et radiologique a montré une bonne cicatrisation muqueuse et un début de cicatrisation osseuse (Fig. 14 et 15).

Discussion

Dans la classification de l'OMS de 1992, les kératokystes étaient classés parmi les kystes épithéliaux des maxillaires,

Fig. 5. Vue endobuccale : site opératoire après énucléation du kyste et résection apicale sur 11, 21 et 22 sur lesquelles on a effectué au préalable un traitement canalaire.

Fig. 5. Intraoral view: site operating after cystic enucleation and apical resection on 11, 21 and 22 having previously underwent endodontic treatment.

d'origine odontogène, dus à une anomalie de développement [1]. Dans la classification de 2005, sa variante parakératosique a été classée comme tumeur odontogène kératokystique (TOK). Elle est définie comme une tumeur bénigne uni ou multiloculaire, intra-osseuse, d'origine odontogène, dont la cavité est bordée par un épithélium pavimenteux stratifié parakératinisé ; cette tumeur a un potentiel agressif et infiltrant [2-5]. La TOK semble dériver de la lame dentaire, ou de ses vestiges, ou de l'assise basale de l'épithélium buccal. Dans 4 à 5 % des cas, elle est associée à la naevomatose basocellulaire ou syndrome de Gorlin-Goltz. Une étude génétique systématique doit être réalisée pour tout kératokyste apparaissant avant l'âge de 20 ans [6, 7].

Cliniquement, le kyste peut se révéler par des douleurs, une tuméfaction intéressant un des maxillaires, parfois associée à un déplacement des dents et/ou à une perte de la sensibilité pulpaire (cas 1). Radiologiquement, la lésion se présente sous la forme d'une image radioclaire, unique ou multiloculaire, à contours nets, parfois associée à une dent incluse (cas 1);

Histologiquement, on retrouve un épithélium malpighien pluristratifié, d'épaisseur régulière, kératinisé avec une para ou orthokératose en surface [8].

Le diagnostic différentiel se fait avec toutes les lésions radioclares uni ou multiloculaires des maxillaires [9] :

- le kyste inflammatoire : une dent mortifiée est à l'origine de ce kyste alors qu'avec le kératokyste, ce sont le déplacement important des dents et/ou la compression qui peuvent induire une perte de sensibilité de la pulpe (cas 1) ;

Fig. 6. Aspect microscopique de la paroi kystique : épithélium malpighien pluristratifié, d'épaisseur régulière, comportant 5 à 9 couches de cellules, avec une parakératose de surface.

Fig. 6. Microscopic aspect of the cystic wall: multilayered squamous epithelium, with 5 to 9 cell layers and a regular thickness with parakeratosis on the surface.

- le kyste dentigère : il se développe autour de la couronne d'une dent incluse, alors qu'avec le kératokyste, c'est le développement important du kyste qui va refouler une dent et empêcher son éruption (cas 2). Dans le cas où le kératokyste se développe lors de l'édification radiculaire, on observe une déformation de la racine (incurvation ou courbure) (cas n°2). Lorsqu'il se développe en juxtaposition à un élément dentaire en formation, il peut causer la dilacération des racines. Par contre, si le kyste se développe après l'éruption des dents, il peut entraîner des déplacements et des malpositions dentaires (cas 1 et 2) ;
- l'améloblastome : une image polygéodique en bulles de savon oriente vers le diagnostic d'améloblastome ou de kératokyste. De plus, pour une lésion siégeant dans l'angle mandibulaire ou le ramus, ces deux entités sont systématiquement évoquées car c'est leur localisation préférentielle ;
- le fibrome : il correspond à une lésion radiotransparente sans calcifications, bien limitée, à prédominance mandibulaire postérieure, associée dans les ¾ des cas à une dent incluse.

Bien qu'ayant une structure d'aspect bénin, le kératokyste odontogène est considéré comme une tumeur agressive avec une tendance élevée à la récurrence. Dans la littérature, on retrouve différentes propositions thérapeutiques allant des

Fig. 7. Contrôle clinique (3^e mois postopératoire) : bonne cicatrisation muqueuse.

Fig. 7. Clinical control (3rd postoperative month): good mucosal healing.

Fig. 8. Radiographie panoramique (1 an postopératoire).

Fig. 8. Panoramic radiograph (1 postoperative year).

traitements conservateurs (énucléation avec ou sans curetage, décompression, marsupialisation) à des traitements plus ou moins agressifs (application de la solution de Carnoy, cryothérapie avec de l'azote liquide, ostéotomie périphérique avec un instrument rotatif, résection [5, 8, 10]. Tous ces traitements cherchent à diminuer les récurrences et à éviter les séquelles fonctionnelles et esthétiques.

La radiothérapie a été utilisée ponctuellement pour le traitement des kératokystes récidivants, mais il y a un risque de dégénérescence maligne des lésions. La chimiothérapie n'est pas indiquée dans le traitement des kératokystes récidivants [10].

Fig. 9. Vue exobuccale : discrète tuméfaction génienne basse droite.
Fig. 9. Exobuccal view: low left laterofacial swelling.

Fig. 10. Vue endobuccale : comblement vestibulaire et linguo-
 position de 44 et 45.
Fig. 10. Intraoral view: vestibular swelling and lingual displacement of 44 and 45.

Fig. 11. Radiographie panoramique : image radioclaire, d'aspect
 kystique, bien limitée, avec 43 incluse et rhizolyse de 2 racines de 46.
*Fig. 11. Panoramic radiograph: image-like radiolucent cystic, well
 limited, with 43 included and resorption of the 2 roots of 46.*

Fig. 12a et 12b. Dentascan. a (coupe axiale) : lésion hypodense, bien
 limitée soufflant la corticale externe ; b (coupe coronale oblique) : la
 lésion a refoulé le nerf alvéolaire inférieur en bas et a entraîné une
 rhizolyse plus ou moins marquée sur 44, 45 et 46.
*Fig. 12a and 12b. Dentascan. a (axial slice): hypodense and well defined
 lesion that blew the external cortical; b (oblique coronal slice): the
 lesion has repressed the inferior alveolar nerve down and led to a
 reduction of 44, 45 and 46.*

Fig. 13. Aspect microscopique : épithélium malpighien pluristratifié, d'épaisseur régulière, avec une orthokératose en surface.
Fig. 13. Microscopic aspect: multilayered squamous epithelium, with a regular thickness and orthokeratosis on the surface.

Fig. 14. Contrôle clinique (3^e mois postopératoire) : bonne cicatrisation muqueuse.
Fig. 14. Clinical control (3rd postoperative month): good mucosal healing.

Les kératokystes présentent un taux de récurrences comparable à celui des améloblastomes. Selon certaines études, le taux de récurrence peut atteindre 62 % des cas [11]. La récurrence des kératokystes serait plus élevée pour la localisation mandibulaire, lorsque le kératokyste est de type parakératosique, que

Fig. 15. Radiographie panoramique (3^e mois postopératoire) : début de cicatrisation osseuse.
Fig. 15. Panoramic radiograph (3rd postoperative month): early bone healing.

son aspect radiologique est multiloculaire et que l'exérèse a été réalisée en plusieurs fragments [12]. Enfin, des transformations améloblastiques (dans le contexte du syndrome de Gorlin-Goltz) et malignes (carcinomes épidermoïdes) ont été décrites [13], ce qui impose un suivi postopératoire à la fois clinique (tous les 6 mois) et radiologique (TDM après 18 mois). La durée du suivi fait l'objet de controverses. Crowley et al. ont montré que 25 % des kératokystes avaient récidivé 9 ans après le traitement initial [14].

Conclusion

Le kératokyste odontogène présente une agressivité loco-régionale et un risque de récurrence plus important que les autres kystes des maxillaires. C'est pour ces raisons que le kératokyste est maintenant plutôt considéré comme une néoplasie kystique bénigne que comme un simple kyste odontogène.

Le diagnostic de certitude est basé sur la confrontation d'éléments cliniques, radiologiques et anatomopathologiques. Le traitement des kératokystes odontogènes reste essentiellement chirurgical mais les choix thérapeutiques sont multiples, variés et font l'objet de controverses.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Bornstein MM, Filippi A, Altermatt HJ, Lambrecht JT, Buser D. Kératokyste odontogène : kyste odontogène ou tumeur bénigne ? Rev Mens Suisse Odontostomatol 2005;115:123-8.

2. Hyun HK, Hong SD, Kim J. Recurrent keratocystic odontogenic tumor in the mandible: a case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009;108: e7-10.
3. Shetty DC, Urs AB, Godhi S, Gupta S. Classifying odontogenic keratocysts as benign cystic neoplasms: a molecular insight into its aggressiveness. *J Maxillofac Oral Surg* 2010;9:30-4.
4. Bhagavandas Rai A, Charan Babu HS, Joshi M. A radiolucent lesion crossing the midline in maxilla: a rare presentation of odontogenic keratocyst in young patient. *J Maxillofac Oral Surg* 2010;9:102-4.
5. Le Toux G, Ales R-P, Mounier C. Approche chirurgicale des kratokystes odontognes : propos de deux cas cliniques. *Med Buccale Chir Buccale* 2001;7:33-41.
6. August M, Faquin WC, Troulis MJ, Kaban LB. Dedifferentiation of odontogenic keratocyst epithelium after cyst decompression. *J Oral Maxillofac Surg* 2003;61:678-83.
7. Anehosur V. Gorlin's syndrome. Report of a case and management of cystic lesions. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;8:184-7.
8. Kissi L, Benyahya I, Rifki A. Le kratokyste isol : propos d'un cas. *J Ordre Dent Quebec* 2006;43:321-8.
9. Perrin JP, Mercier JM, Schmidt J, Piot B. Trs grands kratokystes mandibulaires : mise au point. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2002;103:207-20.
10. Fotso J, Legrand W, Magremanne M. Recurrent maxillo-mandibular odontogenic keratocysts: prevention and treatment. *J Rev Med Brux* 2009;30:515-9.
11. Gonzlez-Alva P, Tanaka A, Oku Y, Yoshizawa D, Itoh S, Sakashita H, Ide F, Tajima Y, Kusama K. Keratocystic odontogenic tumor: a retrospective study of 183 cases. *J Oral Sci* 2008;50:205-12.
12. Chemli H, Dhouib M, Karray F, Abdelmoula M. Les facteurs de risque de rcidive des kratokystes odontogniques des maxillaires. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 2010;111:189-92.
13. Zhang LL, Yang R, Zhang L, Li W, MacDonald-Jankowski D, Poh CF. Dentigerous cyst: a retrospective clinicopathological analysis of 2082 dentigerous cysts in British Columbia, Canada. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2010;39:878-82.
14. Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC. Odontogenic keratocysts: a clinical and histologic comparison of parakeratin and orthokeratin variants. *J Oral Maxillofac Surg* 1992;50:22-6.