



Article
scientifique

Rapport de
cas

2021

Published
version

Public
access

This is the published version of the publication, made available in accordance with the publisher's policy.

Une lésion ostéolytique mandibulaire inhabituelle

Rey Lescure, Manon; Perez, Alexandre; Lombardi, Tommaso

How to cite

REY LESCURE, Manon, PEREZ, Alexandre, LOMBARDI, Tommaso. Une lésion ostéolytique mandibulaire inhabituelle. In: Annales de pathologie, 2021. doi: 10.1016/j.annpat.2021.02.001

This publication URL: <https://archive-ouverte.unige.ch/unige:151315>

Publication DOI: [10.1016/j.annpat.2021.02.001](https://doi.org/10.1016/j.annpat.2021.02.001)

© The author(s). This work is licensed under a Creative Commons Attribution-NonCommercial-NoDerivatives (CC BY-NC-ND) <https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0>

Last deposit update in Archive ouverte UNIGE on 16.03.2023 01:28



ELSEVIER

Disponible en ligne sur

ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France

EM|consulte
www.em-consulte.com



CAS POUR DIAGNOSTIC

Une lésion ostéolytique mandibulaire inhabituelle

An unusual osteolytic lesion of the mandible

**Manon Rey Lescure^{*}, Alexandre Perez,
Tommaso Lombardi**

Service de chirurgie maxillo-faciale, hôpitaux universitaires de Genève, faculté de médecine, laboratoire d'histopathologie buccale et maxillo-faciale, Genève, Suisse

Accepted for publication on 5 February 2021

Observation

Un patient de 29 ans en bonne santé habituelle consulte pour des douleurs spontanées, de faible intensité (1/10 sur l'échelle numérique/échelle visuelle analogique), présentes depuis quelques jours et localisées dans la région mandibulaire droite postérieure. L'examen clinique extra-oral, ainsi que l'examen des muqueuses, étaient sans particularité. L'examen dentaire montrait la présence de traitements conservateurs des dents 46, 47 et 48 sans poche parodontale et une réponse négative à la percussion axiale et latérale. Les dents 45, 46 et 48 étaient positives au test de vitalité tandis que la dent 47 répondait négativement.

Un orthopantomogramme (Fig. 1) révélait une lésion uniloculaire radio-transparente, bien limitée, aux contours polylobulés avec des projections entre les racines, mesurant 36 × 20 mm et se situant au quadrant IV en regard des apex radiculaires des dents 45, 46 et 47 partiellement résorbés (Fig. 1). La lésion refoulait caudalement le canal du nerf alvéolaire inférieur, dont on suspectait également une déhiscence.

Sur le scanner injecté, on retrouvait une lésion ostéolytique mesurant 3,2 × 1,2 × 2,1 cm, englobant les apex des dents 46 et 47, venant au contact de la dent 45 et qui confirmait une résorption des apex de ces dernières. Cette lésion restait au contact du canal du nerf alvéolaire inférieur, avec déhiscence de la corticale crâniale de ce dernier au niveau de la partie antérieure de la lésion sur environ 6 mm de longueur (Fig. 2).

^{*} Auteur correspondant. Unité de chirurgie orale et implantologie,
1, rue Michel-Servet, 1211 Genève 4, Suisse.
E-mail address: manon.reylescure@hcuge.ch (M. Rey Lescure).

<https://doi.org/10.1016/j.annpat.2021.02.001>

0242-6498/© 2021 Les Auteurs. Publié par Elsevier Masson SAS. Cet article est publié en Open Access sous licence CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).



Figure 1. Orthopantomogramme et radiographie intra-orale rétro-alvéolaire (quadrant IV).
Orthopantomogram and retro-alveolar intraoral radiograph (quadrant IV).



Figure 3. Exérèse – macroscopie.
Excision – macroscopy.

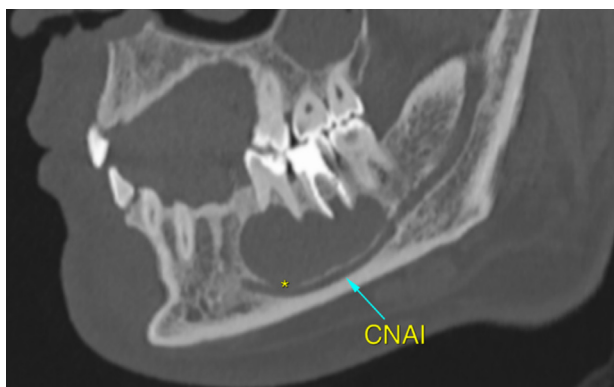


Figure 2. Scanner injecté, coupe sagittale.
Injected scanner, sagittal section.

Le kyste a été énucléé en totalité concomitamment aux extractions des dents 46 et 47 et à l'apicectomie avec traitement rétrograde de la dent 45. La lésion a été prélevée en une pièce et envoyée au laboratoire pour analyse histopathologique. Macroscopiquement, il s'agissait d'une masse charnue compacte mesurant 3,0 × 1,2 × 2,1 cm (Fig. 3). L'analyse histologique montrait un kyste collabé, bordé par un épithélium malpighien non kératinisé avec des indentations profondes. Le tissu conjonctif fibreux sous-jacent comportait un dense infiltrat inflammatoire lymphoplasmocytaire mêlé par endroits de macrophages, situé principalement sous l'épithélium.

Quel est votre diagnostic ?

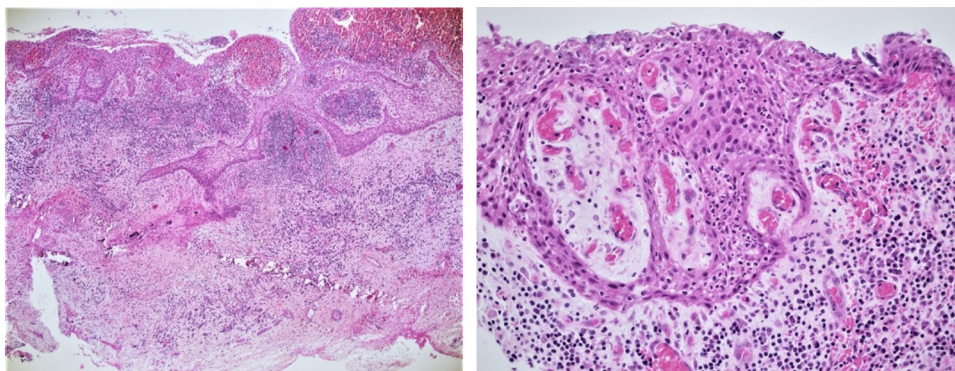


Figure 4. Histologie du kyste radulaire du cas présenté.
Histology of the root cyst of the case presented.

Diagnostic

Kyste radulaire (radiculo-dentaire) de la mandibule.

Discussion

Le kyste radulaire est le kyste odontogène le plus fréquent : il représente 52–68 % de tous les kystes des maxillaires [1,2]. Il a une prédominance au maxillaire supérieur, dans la tranche d'âge entre 30 et 40 ans et semble être plus fréquent chez les sujets de sexe masculin [3]. Son origine est inflammatoire : dans la plupart des cas, il est associé à une dent cariée avec pulpe nécrosée [2] qui engendre une inflammation des tissus péri-apicaux et une stimulation des restes épithéliaux de Malassez. Ces derniers prolifèrent, forment un granulome, puis une lésion kystique. Les kystes radiculaires croissent lentement et sont le plus souvent asymptomatiques : leur découverte peut être fortuite lors d'un examen radiologique.

Les kystes radiculaires volumineux peuvent induire un déplacement ou une mobilité accrue des dents adjacentes [4]. La possibilité d'une résorption radulaire (de la dent causale ou des dents adjacentes) par un kyste radulaire n'a été que très peu rapportée car elle reste rare [3]. Elle est probablement due à l'infection ou aux facteurs ostéoclastiques élaborés par le kyste [4].

Radiologiquement, il se présente comme une géode radio-claire homogène, de forme ronde à ovale bien limitée par un liseré sclérotique [5], ou plus rarement multiloculaire [3], à proximité de l'apex d'une dent non vitale. La plupart des kystes radiculaires sont de petite taille, allant de 0,5 à 1,5 cm [6]. Cependant, la taille radiologique de la lésion ne permet pas de poser un diagnostic.

L'examen histologique d'un kyste radulaire montre une cavité centrale remplie d'une sérosité éosinophile, bordée par un épithélium malpighien non kératinisé, avec parfois de rares cellules muqueuses et exceptionnellement ciliées, souvent spongiotiques avec polynucléaires neutrophiles en exocytose et des indentations profondes (Fig. 4). Dans certains cas, la prolifération épithéliale ressemble à celle d'une tumeur odontogène épidermoïde. Des corps de Rushton, ou corps hyalins, présentant une grande variété de formes, y compris des structures linéaires, rondes, lamellaires ou amorphes, peuvent être observés dans l'épithélium des kystes radiculaires. L'épithélium est entouré d'une capsule

constituée d'un tissu conjonctif fibreux, siège d'un infiltrat inflammatoire chronique habituellement dense et de nombreuses silhouettes de cristaux de cholestérol souvent associés à des granulomes géantocellulaires et à des dépôts d'hémosidérine [7]. L'aspiration d'un kyste radulaire non infecté révèle un liquide sérohématique, contenant généralement une abondance de granules de cholestérol qui confèrent une couleur paille ou dorée chatoyante.

Dans le cas présent, la taille importante, l'aspect radiologique, l'évolution volumétrique rapide, la capacité à induire une résorption radulaire et les constatations intraopératoires de masse charnue de cette lésion faisaient discuter en premier lieu un kyste agressif tel un kératokyste, un améloblastome unikystique ou un éventuel kyste osseux solitaire.

Le kyste osseux solitaire (synonymes : kyste idiopathique, kyste essentiel, kyste osseux traumatique, kyste hémorragique, kyste hématique, cavité osseuse progressive, ostéodystrophie kystique) est une lésion ostéolytique assez fréquente, sans bordure épithéliale, au contenu variable [8]. Dans sa localisation habituelle, la région antéro-moyenne du corps de la mandibule, il réalise une cavité osseuse de forme géodique dont l'examen radiologique montre souvent un aspect festonné autour des racines dentaires. La plupart des cas sont observés dans les deux premières décennies de la vie. Le diagnostic de cette pseudo-tumeur osseuse bénigne repose sur la symptomatologie peu évocatrice, quelques caractéristiques sémiologiques en radiographie standard, la découverte peropératoire d'une cavité vide et sur l'analyse histopathologique qui montre l'absence de bordure épithéliale (Fig. 5). L'ouverture chirurgicale suivie du curetage de la lésion constitue le traitement de choix, en permettant la formation d'un caillot sanguin et une réossification du site [8].

Le kératokyste odontogène représente 11,7 % des kystes des maxillaires. Cette lésion bénigne intra-osseuse se développe principalement à partir de restes de la lame dentaire. Histologiquement, le kératokyste est bordé par un épithélium stratifié parakératosique uniforme, comportant jusqu'à une dizaine de couches cellulaires. L'assise basale est constituée de cellules cylindriques hautes à noyau hyperchromatique. La face profonde est habituellement rectiligne ou montre de petits bourgeons (Fig. 6). La cavité contient des squames de kératine [5]. La paroi conjonctive fibreuse est fine et contient des îlots d'épithélium odontogène vestigial et parfois des kystes satellites.

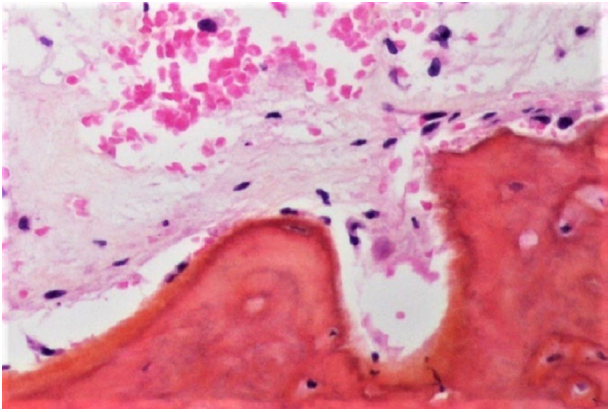


Figure 5. Histologie du kyste osseux solitaire.
Histology of solitary bone cyst.

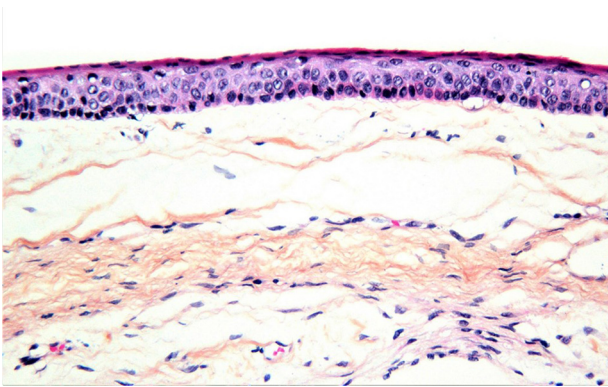


Figure 6. Histologie d'un kératokyste odontogène.
Histology of an odontogenic keratocyst.

De 2005 à 2017, cette lésion était classée par l'OMS (Organisation mondiale de la santé) comme une « tumeur odontogène kératokystique » de par son caractère agressif, son risque élevé de récurrence [5], son association à une mutation du gène suppresseur de tumeur (PTCH1) localisé sur le chromosome 9, la présence de kystes satellites et une association avec la naevomatose basocellulaire (syndrome de Gorlin et Goltz). Cependant, cette lésion est maintenant à nouveau classée dans la catégorie des kystes, car il n'y a pas d'évidence suffisante pour considérer cette pathologie comme une lésion néoplasique.

Le kératokyste se localise principalement au niveau de la partie postérieure du corps mandibulaire, ainsi que dans la branche montante. Sa prévalence est plus élevée chez les hommes que chez les femmes, chez les individus âgés entre 20 et 30 ans et dans la population caucasienne du nord de l'Europe [5].

Cliniquement, le kératokyste est généralement asymptomatique. Cependant, en cas de surinfection, les patients peuvent présenter des douleurs ou une tuméfaction des tissus mous. Dans ce cas, l'histologie montre un aspect de kyste odontogène inflammatoire.

Radiologiquement, il se présente comme une image radio-claire uniloculaire ou multiloculaire, aux contours bien limités par un liseré sclérotique pouvant avoir un aspect festonné [5]. La lésion peut être unique, mais également multiple : c'est généralement chez les patients atteints de la naevomatose basocellulaire que l'on retrouve plusieurs kératokystes.

L'améloblastome est la plus fréquente des tumeurs odontogènes. Cette tumeur bénigne a un potentiel de croissance

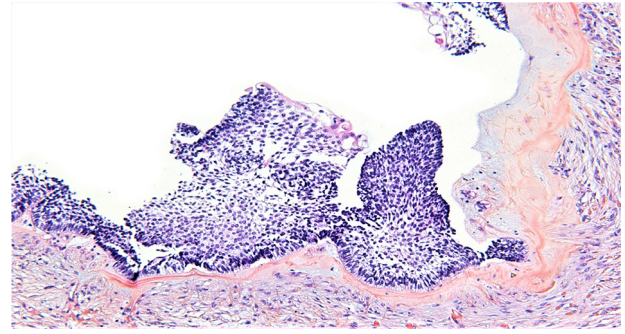


Figure 7. Histologie d'un améloblastome unikystique.
Histology of a unilocular ameloblastoma.

et de destruction des os et des tissus avoisinants qui est localement invasif [9]. Son incidence est plus élevée chez les individus âgés entre 30 et 60 ans, il a une prédominance en Afrique, en Chine et en Inde [9] et il touche autant les hommes que les femmes [5]. On retrouve 80 % des améloblastomes dans la mandibule, généralement en région postérieure du corps et du ramus [5] et 20 % au maxillaire, principalement en région postérieure [9].

Les améloblastomes se développent à partir des restes de la lame dentaire et de l'organe de l'émail, ou moins fréquemment, de l'épithélium bordant un kyste odontogène [5].

Un améloblastome est souvent découvert fortuitement sur une radiographie. En effet, les symptômes sont non spécifiques : les patients présentent typiquement une tuméfaction indolore de la région impliquée et des douleurs peuvent être causées par une hémorragie des tissus mous environnants [9]. Cliniquement, un améloblastome est une masse dure qui peut causer une expansion osseuse [10].

Radiologiquement, il se présente comme une lésion ostéolytique uniloculaire ou multiloculaire (en « bulles de savon ») aux contours festonnés. Il peut induire un amincissement ou une expansion des corticales osseuses et parfois une résorption radiculaire des dents avoisinantes [9]. Une tomographie ou une imagerie par résonance magnétique permettent d'évaluer une possible extension dans les tissus mous.

Actuellement, la dernière classification de l'OMS a été simplifiée et réduite à l'améloblastome (avec plusieurs variétés histologiques), l'améloblastome unikystique et les types extra-osseux.

L'améloblastome unikystique est considéré le type le moins agressif [11] : en effet, il est associé à un risque plus faible de récurrence, répond mieux aux traitements conservateurs [12] et il infiltre rarement les tissus avoisinants [9]. Ce type d'améloblastome touche des individus plus jeunes et peut être parfois associé à une dent de sagesse en cours d'éruption [11]. Il est radiologiquement uniloculaire et bien limité. L'améloblastome unikystique est bordé par un épithélium non kératinisé généralement assez mince. La couche profonde est constituée d'un épithélium fait de cellules basales cylindriques à polarité inversée et à noyau hyperchromatique, qui ressemblent aux améloblastes. Les couches supérieures sont faites de cellules polygonales ou étoilées, peu cohésives entre elles, aux espaces intercellulaires élargis, rappelant le réticulum étoilé (Fig. 7). Sur certaines zones, l'épithélium peut montrer un aspect non spécifique comme celui d'un kyste dentigère.

L'améloblastome unikystique est divisé en 3 sous-types : l'améloblastome pariétal (luminal) qui n'intéresse

que la bordure épithéliale et de très bon pronostic, l'améloblastome intraluminal (habituellement de type plexiforme) qui se projette dans la cavité et l'améloblastome mural qui pénètre dans la paroi conjonctive et se comporte de manière similaire à l'améloblastome conventionnel avec des taux de récurrence semblables.

L'améloblastome et le kystocyste requièrent des traitements plus agressifs que le kyste radicaire. Ils sont multiples pour l'améloblastome et dépendent souvent de son type et de sa localisation : une résection marginale ou segmentaire, une énucléation, un curetage, une marsupialisation, une cryothérapie ou une combinaison de ces techniques peuvent être effectués [10]. Le traitement de choix du kystocyste et qui réduira son risque de récurrence consiste en l'énucléation de la lésion avec application d'une solution de Carnoy ou d'une cryothérapie [13].

Conclusion

Le kyste radicaire peut présenter un aspect radiologique atypique qui fait discuter d'autres lésions odontogènes. Le diagnostic définitif, basé sur l'examen histopathologique, est nécessaire avant de choisir le traitement adéquat et ciblé d'une lésion kystique. Dans le cas d'un kyste radicaire, un traitement endodontique ou l'extraction de la dent nécrosée causale, associé à l'exérèse de la lésion dans sa totalité est le traitement de choix.

Déclaration de liens d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de liens d'intérêts.

References

[1] Johnson NR, Gannon OM, Savage NW, Batstone MD. Frequency of odontogenic cysts and tumours: a systematic review. *J Investig Clin Dent* 2014;5:9–14.

[2] Shivhare P, Singh A, Haidry N, Yadav M, Shankarnarayan L. Multilocular radicular cyst – a common pathology with uncommon radiological appearance. *J Clin Diagn Res* 2016;10:ZD13–5.

[3] Noda A, Abe M, Shinozaki-Ushiku A, Ohata Y, Zong L, Abe T, et al. A bilocular radicular cyst in the mandible with tooth structure components inside. *Case Rep Dent* 2019;1:1–4, <http://dx.doi.org/10.1155/2019/6245808>.

[4] Quadri A, Keerthi R, Khan TA. Unusual aggressive large radicular cyst invading maxillary sinus: a case report. *Int J Sci Stud* 2016;4:180–3.

[5] Avril L, Lombardi T, Ailianou A, Burkhardt K, Varoquaux A, Scolozzi P, et al. Radiolucent lesions of the mandible: a pattern-based approach to diagnosis. *Insights Imaging* 2014;5:85–101.

[6] Kolari V, Rao HTA, Thomas T. Maxillary and mandibular unusually large radicular cyst: a rare case report. *Natl J Maxillofac Surg* 2019;10:270–3.

[7] El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. WHO classification of head and neck tumours. 4th edition; 2017. p. 204–7.

[8] Nelson BL. Solitary bone cyst. *Head Neck Pathol* 2010;4:208–9.

[9] Kreppel M, Zöller J. Ameloblastoma – clinical, radiological, and therapeutic findings. *Oral Dis* 2018;24:63–6.

[10] Bisinelli JC, Ioshii S, Retamoso LB, Moyses ST, Moyses SJ, Tanaka OM. Conservative treatment of unicystic ameloblastoma. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2010;137:396–400.

[11] McClary AC, West RB, McClary AC, Pollack JR, Fischbein NJ, Holsinger CF, et al. Ameloblastoma: a clinical review and trends in management. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2016;273:1649–61.

[12] Siriwardena BSMS, Tennakoon TMPB, Hunter KD, Tilakaratne WM. Unicystic ameloblastoma: analysis of 370 cases in a single center in Sri Lanka. *J Oral Pathol Med* 2018;47:706–9.

[13] Al-Moraissi EA, Dahan AA, Alwadeai MS, Oginni FO, Al-Jamali JM, Alkhatari AS, et al. What surgical treatment has the lowest recurrence rate following the management of keratocystic odontogenic tumour?: A large systematic review and meta-analysis. *J CranioMaxillofac Surg* 2017;45:131–44.