

Observation clinique

Tumeur kératokystique étendue : à propos d'un cas

Vanessa Baaroun^{1,2,*}, Rafael Toledo¹, Jean Azerad¹, Vianney Descroix^{1,2}

¹ Service d'Odontologie du Groupe hospitalier Pitié-Salpêtrière, Charles Foix, Paris, France

² Laboratoire de Physiopathologie orale moléculaire, UMRS 872, Centre de Recherche des Cordeliers, Paris, France

(Reçu le 13 juillet 2013, accepté le 9 septembre 2013)

Mots clés :
tumeur kératokystique /
décompression /
lésion volumineuse

Résumé – Introduction : Les tumeurs kératokystiques, ou TKK, sont des tumeurs odontogènes épithéliales caractérisées par leur agressivité locale et leur propension à récidiver. Ainsi, diverses techniques ont été proposées afin de réduire le taux de récurrence. **Observation :** Nous rapportons ici le cas d'une patiente présentant une volumineuse lésion radio-claire maxillaire ; le diagnostic de présomption posé a été celui d'un TKK. Etant donné l'âge de la patiente, la localisation de la lésion et l'atteinte des structures environnantes, il a été décidé de réaliser une décompression suivie d'une énucléation. Cette phase de décompression a duré 9 mois ; l'examen anatomopathologique de la paroi prélevée lors de la mise en place du drain a confirmé le diagnostic de TKK. Deux ans après l'énucléation, aucune récurrence n'a été observée et toutes les dents répondaient aux tests de vitalité pulpaire. **Commentaires :** La décompression reste une option thérapeutique dans la prise en charge des lésions volumineuses, afin de limiter les séquelles fonctionnelles et esthétiques, mais aussi de réduire le taux de récurrence.

Key words:
keratocystic
odontogenic tumor /
decompression /
large lesion

Abstract – Large keratocystic tumor: report of a case. Introduction: Keratocystic odontogenic tumors (KCOT) are epithelial tumors characterized by their aggressiveness and their tendency to recur. So, different techniques are proposed to decrease the recurrence rate. **Observation:** Here we'll expose the case of a female patient presenting a large radiolucent maxillary lesion; our presumptive diagnosis was KCOT. Given the young age of the patient, the localization of the lesion and that surrounding structures are attained, we decided to do a decompression followed by an enucleation. Decompression lasted 9 months; anatomopathological exam of the lesion wall removed for the drain installation confirmed KCOT diagnosis. Two years after enucleation, no recurrence was observed and every tooth responds to pulp vitality tests. **Discussion:** Decompression is still a therapeutic option for large lesions, to limit functional and aesthetic sequelae, but also to decrease recurrence rate.

Introduction

Les kératokystes sont considérés comme des tumeurs bénignes depuis la révision de la classification OMS en 2005 [1]. Cette modification est due à leur fort taux de récurrence ainsi qu'à leur agressivité locale. Afin d'éviter, ou du moins de réduire, les récurrences post-chirurgicales, les praticiens ont à disposition différentes techniques complémentaires, comme la cryothérapie, la solution de Carnoy, l'ostéotomie plus ou moins large, et la marsupialisation/décompression. L'association des techniques complémentaires à l'énucléation a montré que les taux de récurrence étaient inférieurs à ceux de l'énucléation seule [2].

La décompression apparaît alors comme un compromis intéressant, afin de diminuer le taux de récurrence mais aussi la taille de la lésion, et donc la morbidité liée à une intervention chirurgicale large. Nous rapportons ici le cas d'une patiente âgée de

20 ans présentant un kératokyste maxillaire traité par décompression et chirurgie.

Observation

Une femme de 20 ans, sans antécédents médico-chirurgicaux particuliers, a consulté aux urgences du service d'Odontologie du Groupe hospitalier Pitié-Salpêtrière. Elle a été adressée par son chirurgien-dentiste traitant pour « une large lésion radio-claire du maxillaire ». L'examen exobuccal n'a retrouvé aucune adénopathie ou asymétrie faciale. L'examen endobuccal montrait une simple voussure palatine, sans signe muqueux associé, et une rotation de 11 et 12. Toutes les dents répondaient normalement aux tests de vitalité pulpaire. La radiographie panoramique (Fig. 1) montrait une large lésion radio-claire maxillaire centrée sur la 13 et s'étendant de 16 à 22. La

* Correspondance : vanessa.baaroun@gmail.com

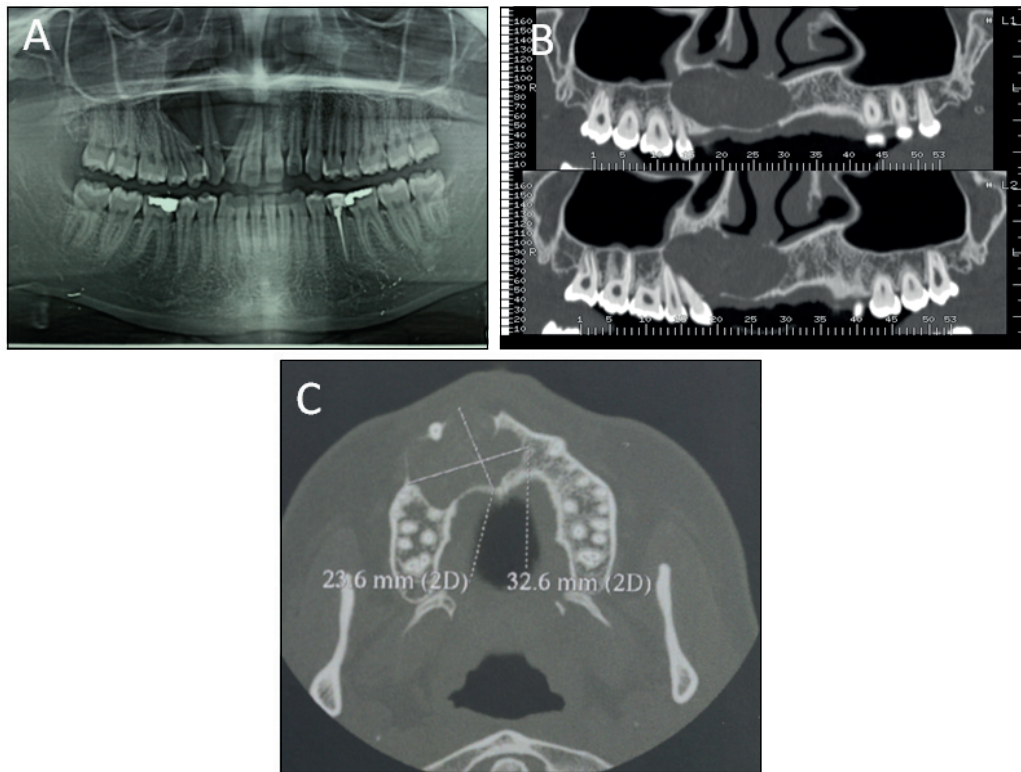


Fig. 1. Examens radiographiques préopératoires de la lésion. A : radiographie panoramique ; B : CT-scan ; C : taille de la lésion.
Fig. 1. Radiographic exams. A: panoramic radiography; B: CT-scan ; C: size of the lesion.

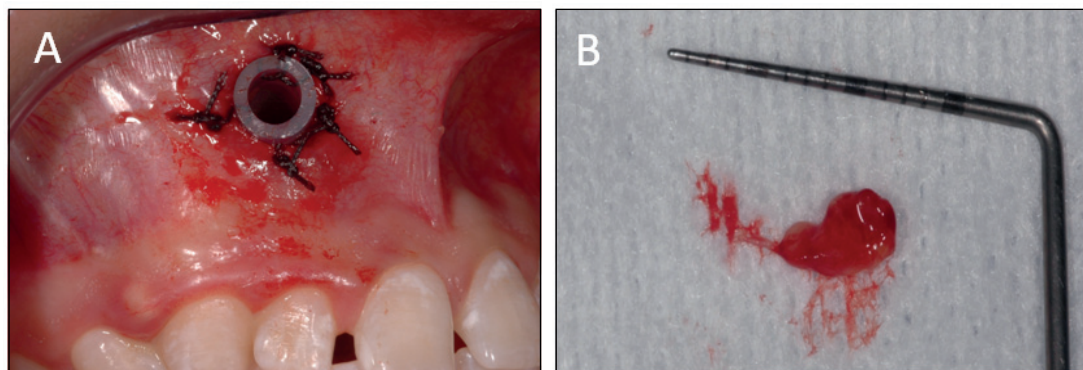


Fig. 2. Décompression. A : mise en place du drain de décompression ; B : prélèvement de la paroi lésionnelle envoyée pour examen anatomopathologique.
Fig. 2. Decompression. A: drain installation; B: biopsy sent for anatomopathological analysis.

lésion était homogène, ovale, à grand axe mésio-distal, bien délimitée par un liseré d'ostéocondensation. L'examen tomodensitométrique a permis d'évaluer la taille de la lésion, qui était de 23 × 32 mm. Il a également été constaté une résorption du plancher de la fosse nasale droite et d'une partie de la paroi antérieure du sinus maxillaire droit. Les corticales vestibulaire et palatine étaient elles aussi largement résorbées (Fig. 1). Face à ces signes cliniques et radiographiques, le diagnostic de présomption posé a été celui d'un kératokyste, avec comme possible diagnostic différentiel celui d'un améloblastome.

Étant donné l'âge de la patiente et les dommages esthétiques et fonctionnels qu'entraînerait une énucléation directe, il a été décidé de réaliser une décompression. Sous anesthésie locale, une partie de la paroi vestibulaire et le contenu de la lésion ont été prélevés et envoyés pour examen anatomopathologique. Un drain en silicone a été mis en place en position vestibulaire, entre les racines de 12 et 13, et maintenu par des sutures non résorbables (Fig. 2). Il a ensuite été demandé à la patiente de réaliser des lavages biquotidiens via le drain avec un mélange à part égale de chlorhexidine à 0,5 % et de sérum

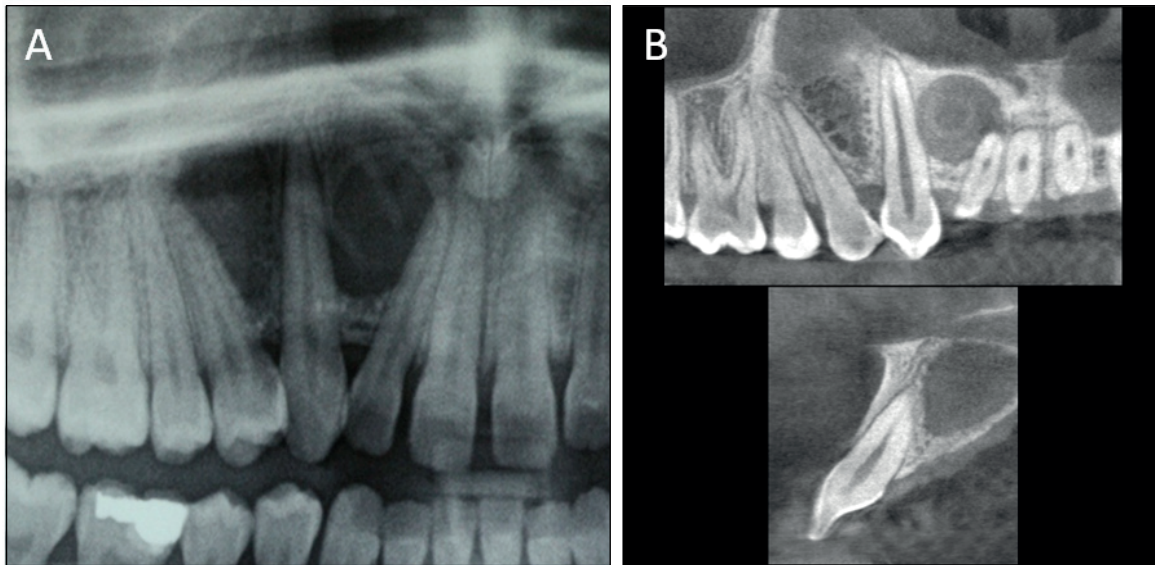


Fig. 3. Examens radiographiques après 9 mois de décompression. A : radiographie panoramique ; B : examen CBCT. Sur l'image du haut, on peut noter la présence d'une fenêtre corticale, mésiale à la 13, correspondant au drain de décompression.

Fig. 3. Radiographic exams at 9 month post-decompression. A: panoramic radiography; B: CBCT exam; one can note the persistence of a cortical window, mesial to 13, because of the presence of the decompression drain.

physiologique stérile, grâce à une seringue souple. La solution d'irrigation a ici un but de lavage mécanique, afin d'éviter toute accumulation de débris organiques d'origine bactérienne ou alimentaire. Ces lavages ont été réalisés jusqu'à la ré-intervention, c'est-à-dire jusqu'à la dépose du drain.

L'examen anatomopathologique a confirmé le diagnostic de kératokyste, notamment en raison de la présence de matériel basophile avec des lamelles de kératine dans le liquide intra-lésionnel et d'un épithélium malpighien surmonté d'une épaisse couche de kératine (paroi de la lésion) avec une couche basale palissadique.

Les contrôles radiographiques (panoramiques) réalisés tous les 3 mois afin de surveiller la diminution de taille de la lésion, et un examen CBCT au 9^e mois postopératoire (Fig. 3) ont permis d'objectiver une diminution de la taille de la lésion, la régénération des corticales palatine et vestibulaire et la disparition du contact du kyste avec le sinus maxillaire et les fosses nasales. Il a été décidé de réaliser la dépose du drain, qui était alors partiellement recouvert par la muqueuse, et l'énucléation de la lésion. La voie d'abord choisie a été vestibulaire, via la fenêtre osseuse laissée par le drain (qui a été élargie chirurgicalement). Après exérèse de la lésion, le site a été refermé ; la fermeture de la fistule (emplacement du drain) a été faite par simple suture, après désépithélialisation de la paroi.

L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a montré une simple lésion kystique inflammatoire, ayant perdu les caractéristiques du kératokyste.

Les contrôles postopératoires cliniques et radiographiques ont été réalisés tous les 3 mois pendant 1 an, puis une fois par an. Deux ans après l'énucléation (Fig. 4), aucune récurrence

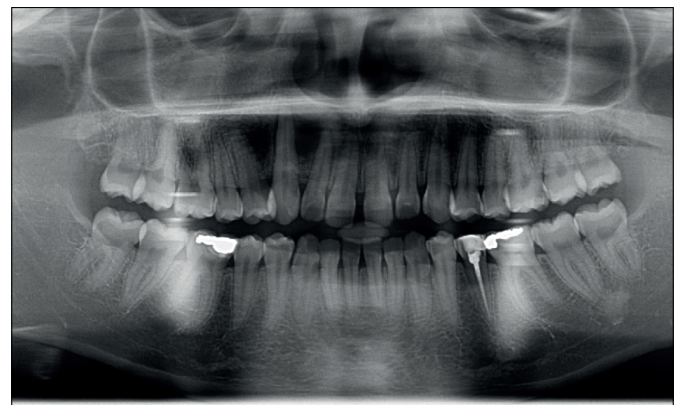


Fig. 4. Radiographie panoramique à 2 ans après énucléation. On peut noter que la cicatrization osseuse n'est pas encore complète.

Fig. 4. Panoramic radiography 2 years after enucleation. One can note that bone cicatrization isn't however complete.

n'a été constatée, et les dents répondaient toujours aux tests de vitalité pulpaire.

Commentaires

Différentes options thérapeutiques s'offrent au praticien face à une tumeur kératokystique : l'énucléation simple [3], la résection large, ou la marsupialisation/décompression. La décompression est une technique décrite initialement par Partsch au 19^e siècle. Ses avantages en ce qui concerne les

kératokystes sont une réduction de la taille de la lésion, et donc de s'éloigner de structures nobles, une modification phénotypique des tissus constituant la lésion et une diminution du taux de récurrence. Cependant, la décompression nécessite une bonne compliance du patient, entraîne un net allongement de la durée de traitement et ne dispense pas d'une énucléation secondaire.

Dans le cas rapporté, cette technique a été choisie pour quatre raisons : éviter l'atteinte de structures nobles avoisinantes, la grande taille de la lésion, le nombre important de dents en rapport avec la lésion, mais aussi en raison de la motivation de la patiente. Cette compliance est un élément essentiel du traitement, à la fois lors de la phase de décompression mais aussi lors du suivi postopératoire après énucléation. Généralement, lors de la première année, les contrôles s'effectuent tous les 6 mois. Dans notre cas, la décision d'un contrôle clinique tous les 3 mois a été prise afin de surveiller la vitalité pulpaire des dents en rapport avec la lésion (par des tests thermiques), et pour prévenir toute complication locale due à une potentielle nécrose pulpaire. Les clichés panoramiques ont été réalisés pour objectiver la cicatrisation osseuse postopératoire.

Concernant la réduction de taille de la lésion, celle-ci a été décrite dans diverses études, mais une publication récente portant sur la décompression de 28 tumeurs kératokystiques a précisé qu'en moyenne, la taille de la lésion diminuait de moitié au bout de 9 mois de décompression, et que cette réduction était d'autant plus rapide que la taille initiale de la lésion était importante [4].

La modification phénotypique, également appelée « dédifférenciation », aboutit à la perte des caractéristiques initiales de la lésion tant d'un point de vue histologique que moléculaire. Ainsi les cas décrits dans la littérature montrent que l'examen anatomopathologique après décompression conclut à un simple kyste inflammatoire, et non plus à une tumeur. Cette modification phénotypique a également été démontrée au niveau moléculaire avec par exemple une diminution de l'expression de l'interleukine 1 alpha (IL-1 α) et de la cytokératine 10 (CK10) [5, 6].

Enfin, un des avantages qui semble le plus important reste la réduction du taux de récurrence après décompression. Plusieurs études se sont intéressées aux avantages de la décompression par rapport à l'énucléation simple ; ainsi, Kolokythas et al. ont réalisé une étude en 2007 comparant l'énucléation associée à la résection (11 patients) contre l'énucléation précédée d'une décompression (11 patients) [7] ; à 2 ans, ils ont observé seulement deux récurrences dans le groupe décompression, mais la différence n'est pas statistiquement significative. En 2002, Zhao et al. ont réalisé une étude sur 255 patients présentant un kératokyste, traités par énucléation simple ($n = 163$), associée à l'utilisation de solution de Carnoy ($n = 29$), une marsupialisation ($n = 11$) ou une résection ($n = 52$) [6]. Dans le groupe énucléation simple, 29 récurrences ont été constatées (17,8 %), et 2 dans le groupe solution de Carnoy (6,7 %) ;

aucune dans les autres groupes après un suivi moyen de 8 ans (de 3 à 29 ans). Dans cette étude, le taux de récurrence est statistiquement plus important en cas d'énucléation simple par rapport à l'énucléation associée à une technique complémentaire, notamment la décompression ($p < 0,05$) [8].

Pourtant, la grande hétérogénéité des études publiées sur le sujet exclut de pouvoir établir un protocole « standard » ou un arbre décisionnel facilitant la prise en charge de ces patients, tout en réduisant le risque de morbidité chirurgicale et de récurrence. Cela a été confirmé en 2010 par une revue de littérature sur les traitements des kératokystes réalisée par la Cochrane Database. Celle-ci concluait qu'en l'absence d'étude remplissant les critères d'inclusion, il était impossible de préférer une technique à une autre [9].

Cependant, les raisons de cette baisse du taux de récurrences ne sont pas encore totalement comprises, notamment car la raison même des récurrences n'est pas élucidée. Différentes hypothèses sont cependant avancées :

- Les tumeurs kératokystiques récidiveraient car l'énucléation de la lésion initiale ne serait pas totale : ainsi, la décompression réduisant la taille de la lésion, l'énucléation secondaire serait facilitée ;
- La récurrence serait due au potentiel prolifératif important de la couche épithéliale : la décompression, comme il a été précisé, entraîne une différenciation phénotypique, avec perte ou diminution de l'expression de protéines telles que l'IL1 α et le CK10 [3] ; or, ces protéines stimulent la prolifération des cellules épithéliales et des kératinocytes. Ainsi, même si du matériel tumoral est laissé en place, celui-ci n'a plus le potentiel tumoral initial ;
- Enfin, les récurrences seraient dues à des kystes satellites, ou kystes filles, laissés sur le site lors de l'énucléation : la décompression induirait un changement phénotypique identique dans les kystes satellites à celui observé dans la paroi de la lésion « principale » ; cependant, les données de la littérature sont parfois contradictoires concernant la différenciation des kystes satellites [6, 10].

La décompression apparaît donc comme une option thérapeutique intéressante face à des lésions de grande taille, à la fois pour réduire les séquelles postopératoires, mais également les récurrences. Cependant, la biopsie pré-décompression reste une phase importante de ce type de traitement, afin d'obtenir une confirmation anatomopathologique fiable du diagnostic de présomption.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Philipsen HP (2005) In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. World health organization classification of tumours.

- Pathology and genetics of head and neck tumours. IARC, Lyon, pp. 306-7.
2. Blanas N, Freund B, Schwartz M, Furst IM. Systematic review of the treatment and prognosis of the odontogenic keratocyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2000;90:553-8.
 3. Le Toux G, Ales R-P, Mounier C. Surgical approach of odontogenic keratocysts. Reports of two cases. *Med Buccale Chir Buccale* 2001;7:33-41.
 4. Kubota Y, Imajo I, Itonaga R, Takenoshita Y. Effects of the patient's age and the size of the primary lesion on the speed of shrinkage after marsupialisation of keratocystic odontogenic tumours, dentigerous cysts, and radicular cysts. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2013;51:358-62.
 5. Ninomiya T, Kubota Y, Koji T, Shirasuna K. Marsupialization inhibits interleukin-1 alpha expression and epithelial cell proliferation in odontogenic keratocysts. *J Oral Pathol Med* 2002;31:526-33.
 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. Kolokythas A, Fernandes RP, Pazoki A, Ord RA. Odontogenic keratocyst: to decompress or not to decompress? A comparative study of decompression and enucleation versus resection/peripheral ostectomy. *J Oral Maxillofac Surg* 2007;65:640-4.
 8. Zhao YF, Wei JX, Wang SP. Treatment of odontogenic keratocysts: a follow-up of 255 Chinese patients. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:151-6.
 9. Sharif FNj, Oliver R, Sweet C, Sharif MO. Interventions for the treatment of keratocystic odontogenic tumours (KCOT, odontogenic keratocysts (OKC)). *Cochrane Database Syst Rev* 2010;(9):CD008464. doi:10.1002/14651858.CD008464.pub2.
 10. Marker P, Brøndum N, Clausen PP, Bastian HL. Treatment of large odontogenic keratocysts by decompression and later cystectomy: a long-term follow-up and a histologic study of 23 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;82:122-31.