

Traitement et évolution du kératokyste odontogène récidivant

Présentation d'un cas

Christoph B. Schultz, Gion F. Pajarola et Klaus W. Grätz
Clinique de médecine dentaire, de stomatologie et
de chirurgie buccale,
Centre de médecine dentaire et de stomatologie
de l'Université de Zurich

Mots clés: kératokyste odontogène, kystes satellites,
kystotomie selon Brosch, kystectomie selon Voorsmit

Adresse pour la correspondance:
Prof. Dr K. W. Grätz
Klinik für Zahn-, Mund- und Kieferkrankheiten
und Kieferchirurgie
Zentrum für Zahn-, Mund- und Kieferheilkunde
der Universität Zürich
Plattenstrasse 11
CH-8028 Zurich
Tél +41 (0)1 634 32 90
Fax +41 (0)1 634 43 28

Traduction française de Thomas Vauthier

En raison de la présence de structures ectodermiques dans l'os, les kystes intéressant la région des maxillaires sont particulièrement fréquents. Après l'éruption des dents, des vestiges épithéliaux (dits de Malassez) sont susceptibles de persister dans l'os maxillaire. Sous l'influence de différents stimuli, ces vestiges épithéliaux ont tendance à confluer et à subir une nécrose centrale, représentant ainsi un point de départ à la formation d'un kyste. La pathogenèse exacte des kystes n'est pas complètement éclaircie. Selon l'une des hypothèses, la prolifération kystique serait due à la pression osmotique à l'intérieur de la lumière kystique, consécutive à la nécrose épithéliale. Selon les recommandations de l'OMS relatives à la classification histologique des lésions des maxillaires, les kératokystes, comme les kystes solitaires de l'os (kystes primordiaux), appartiennent au groupe des kystes maxillaires épithéliaux dus à des troubles du développement. Parmi les kystes odontogènes, les kératokystes occupent une place à part, en raison de leur propension marquée aux récurrences et de leur croissance localement agressive. Les concepts thérapeutiques vont de la simple kystectomie pour les kystes peu volumineux, en passant par la résection partielle du maxillaire, jusqu'à la résection mandibulaire avec interruption de la continuité en cas de kystes volumi-

(Illustrations et bibliographie voir texte allemand, page 555)

neux. Certains auteurs préconisent la technique chirurgicale en deux temps, comprenant dans un premier temps la fenestration du kyste, suivie dans un deuxième temps par une kystotomie selon Brosch.

La présente documentation d'un cas clinique a comme objectif d'illustrer de manière exemplaire l'évolution, ainsi que le traitement des kératokystes odontogènes récidivants, tel qu'il est habituellement pratiqué dans le cadre de la Clinique de médecine dentaire, de stomatologie et de chirurgie buccale de l'Université de Zurich.

Introduction

Le kyste peut être défini comme étant une néoformation pathologique, à croissance centrifuge, dont les parois sont refermées sur elles-mêmes à l'image d'un ballon, et dont la lumière est remplie d'un contenu fluide à pultacé. Les parois kystiques sont bordées d'un revêtement épithélial dont le comportement en tant que membrane semi-perméable revêt une certaine importance. Le kératokyste est dû à une dystrophie de l'épithélium odontogène de la lame dentaire ou de ses vestiges (PINDBORG &

HANSEN 1963). Actuellement, la littérature emploie à titre de synonymes les termes de kyste primordial, de kératokyste odontogène ou de kératokyste, en accord avec les recommandations de l'OMS en matière de classification des kystes maxillaires; tant sur le plan histologique que clinique, ces termes sont considérés comme représentant une entité. Le terme «primordial» se réfère alors au mode de formation, alors que le terme «odontogène ou odontogénique» en indique l'étiologie (STEFANI-RUCKSTUHL 1994). Ni la pathogenèse, ni les causes de la propension à la croissance expansive des kystes ne sont entièrement élucidées jusqu'à présent. Deux hypothèses ont été avancées à ce sujet: d'une part, il se pourrait que l'action de stimuli inflammatoires ou traumatiques sur un épithélium au repos en déclenche la prolifération; d'autre part, la prolifération épithéliale est considérée par certains auteurs comme étant elle-même un facteur causal de la formation du kyste. Le processus de croissance se déroule soit de manière continue, soit par poussées. L'expansion du kyste entraîne des lésions des tissus adjacents, par atrophie de compression, par résorption ou par refoulement. L'augmentation du volume est le résultat de l'augmentation de la pression à l'intérieur de la cavité kystique, consécutive à l'attraction de liquides par des processus osmotiques à travers l'épithélium de bordure qui agit comme une membrane semi-perméable (NEUKAM & BECKER 2002). Par contre, on peut réfuter l'hypothèse selon laquelle l'expansion volumique serait déclenchée par les propriétés des éléments tissulaires (BROSCH 1957).

La prévalence des lésions kystiques est particulièrement élevée dans la sphère des maxillaires, en raison de la présence de vestiges dispersés de l'épithélium de la lame dentaire. L'action de stimuli inflammatoires ou traumatiques sur un épithélium au repos est susceptible d'en déclencher une prolifération; après cessation de l'irritation, l'épithélium peut retourner au stade de repos. D'autre part, la prolifération épithéliale est considérée par certains auteurs comme étant elle-même un facteur causal de la formation du kyste.

Il ne ressort pas clairement de la littérature si les kératokystes ont une tendance à la dégénérescence maligne. Alors que Kramer et Toller partaient de l'idée que les kératokystes sont grevés d'un risque potentiel plus important de dégénérescence maligne que les autres types de kystes (KRAMER 1963; TOLLER 1967), Browne et Gough estimaient que ce risque est extrêmement faible (BROWNE & GOUGH 1972).

En raison des différences au niveau des conséquences thérapeutiques, les similarités radiologiques du kératokyste avec l'améloblastome, le kyste folliculaire et le myxome odontogène nécessitent, en cas de doute, de poser une différenciation préalable par un examen histologique (HARDT & VON ARX 1990).

La prévalence des kératokystes est relativement faible et ne représente qu'entre 1,7% et 10,5% des kystes odontogènes (HOFFMEISTER & HÄRLE 1985). Toutefois, en raison de leur comportement clinique, notamment du taux élevé de récives, le traitement des kératokystes pose des problèmes particulièrement importants. En effet, après des traitements conventionnels, comme la kystotomie ou la kystectomie, il faut s'attendre à des taux de récives de 31,5% en moyenne (ZACHARIADES et coll. 1985). Pour cette raison, différents concepts thérapeutiques, visant l'objectif de la prévention des récives, ont été proposés: Farmand et Marek ont modifié une procédure, déjà décrite par Brosch, qui comprend une décortication latérale dans la région de la lumière du kyste, avec élimination de l'épithélium kystique et une marsupialisation consécutive (FARMAND & MAREK 1983). Voorsmit propose la kystectomie après fixation préalable du sac kystique par la solution de Carnoy, ainsi que la résection de la

muqueuse à proximité du kyste (VOORSMIT et coll. 1981). D'autres auteurs préconisent la résection radicale du maxillaire touché (LENTRODT & GUNDLACH 1978).

L'objectif de cette présentation d'un cas clinique est d'illustrer la démarche diagnostique et le choix des modalités thérapeutiques du kératokyste odontogène, sans oublier la prise en charge du patient souffrant d'une lésion récidivante de ce type au niveau de la mandibule.

Présentation du cas

En l'occurrence, il s'agissait d'un patient né en 1947 qui, alors âgé de 25 ans, avait été adressé en 1971 par son médecin-dentiste de famille à la Clinique de médecine dentaire, de stomatologie et de chirurgie buccale de l'Université de Zurich. Le patient ne présentait aucun symptôme et la lésion ayant motivé la consultation spécialisée avait été découverte par hasard sur un cliché apical réalisé lors d'un contrôle radiologique de routine chez le praticien privé. L'examen histologique a confirmé le diagnostic de suspicion d'un kyste odontogène localisé dans le maxillaire inférieur gauche avec une 38 incluse en position ectopique. Le présent historique du cas documente le traitement durant plusieurs décennies d'un kératokyste odontogène récidivant localisé au niveau de la mandibule.

Anamnèse

Patient âgé de 25 ans, sportif, sans symptômes actuels et en bonne santé. Auscultation cardiaque sans particularités, pulsations régulières, fréquence 80/min. TA 120/72 mmHg. Aucune indication d'allergies, de tuberculose ou de diabète dans l'anamnèse.

Parmi les maladies d'enfance, rougeole à l'âge de 10 ans et oreillons à l'âge de 12 ans. Opération d'une hernie inguinale sous anesthésie générale en 1967. Opération d'un fibrome thoracique en 1969, également sous anesthésie générale. Traitement urologique en juin 1971 en raison d'une gonorrhée. Le patient fumait deux pipes par jour et consommait peu d'alcool.

Anamnèse familiale

Père décédé en 1967 à l'âge de 74 ans des suites d'un cancer intestinal. Mère âgée de 54 ans, status après arthrodèse du genou, autrement en bonne santé. Quatre frères et une sœur, également en bonne santé.

Anamnèse actuelle

Patient adressé par son médecin-dentiste de famille à la Clinique de médecine dentaire, de stomatologie et de chirurgie buccale de l'Université de Zurich pour investigation d'une ostéolyse kystique découverte au niveau de la mandibule gauche.

Examens

Status extraoral

Visage allongé, rectangulaire et symétrique. Petites asymétries des contours du visage à la comparaison visuelle des deux côtés faciaux. La palpation de la région cervicale et de la nuque ne révèle ni ganglions lymphatiques, ni indurations, ni points douloureux. Examen sensomoteur des territoires des V^e et VII^e nerfs crâniens dans les limites de la norme. Aucune limitation de la mobilité des articulations temporo-mandibulaires.

Status intraoral

Présence d'une fenestration de la mandibule dans la région de la 38, avec tamponnade par un drain vaseliné iodoformé. Obtur-

ration à l'amalgame de la 37 avec carie secondaire distale. Traitement endodontique de la 35 avec fracture de la couronne. La mobilité et la sensibilité de la langue et des voiles du palais étaient normales. Denture soignée; tous les tests de vitalité au CO₂ étaient positifs, sauf sur la 35. Gencives et muqueuses sans particularités. Absence de signes d'induration, de crispation ou de douleurs au niveau de la musculature masticatrice. Présence d'une tuméfaction corticale indolore en regard de la 38 incluse.

Status radiologique

L'examen radiologique comprenait un OPG et un cliché occlusal du maxillaire inférieur focalisé sur le deuxième plan. Le montage des clichés réalisés en 1971 (fig. 1) met en évidence une ostéolyse étendue, pluriloculaire, bien délimitée, au niveau de l'angle gauche de la mandibule. La lésion à bords nets se propageait jusque dans la branche montante et avait provoqué un léger ballonnement de la région de l'angle mandibulaire. La troisième molaire inférieure gauche est localisée à la base de la lésion kystoïde. Le cliché occlusal du maxillaire inférieur permet de préciser sans équivoque la localisation vestibulaire de la dent de sagesse incluse. Aucun indice de malignité du point de vue radiologique.

Examen histopathologique

Le prélèvement se composait en majeure partie de tissu conjonctif riche en fibres. L'examen révélait en outre des éléments d'un épithélium pavimenteux, tantôt mince, tantôt plus large, à couches régulières et sans altérations néoplasiques.

Diagnostic

Kyste mandibulaire odontogène tapissé d'un épithélium pavimenteux orthokératosique.

Proposition thérapeutique

Opération selon Brosch du kyste mandibulaire gauche, y compris avulsion chirurgicale de la 38 incluse.

Traitement

La phase préopératoire, effectuée en juin 1971, comprenait la fenestration de la lumière kystique à travers la corticale vestibulaire et le prélèvement d'une biopsie du sac kystique en vue de l'examen histopathologique (fig. 2).

Le renouvellement réitéré des drains vaselinés iodoformés a permis de garder ouverte la fenestration de la lumière kystique sur une période de quatre mois; en procédant ainsi, on pouvait s'attendre à une apposition osseuse réparatrice le long des bords circulaires de la lésion. La néoformation osseuse est particulièrement bien visible dans la région mésio-coronaire en regard de la dent de sagesse incluse (fig. 3).

L'opération selon Brosch du kyste mandibulaire, avec avulsion chirurgicale extemporanée de la 38 a eu lieu en mars 1972. Cette intervention secondaire a été réalisée sous anesthésie générale par intubation nasale. L'incision, partant de la branche montante, se prolongeait le long de la crête alvéolaire jusqu'au repli vestibulaire dans la région de la 34. Après mobilisation d'un lambeau mucopériosté, l'intervention s'est poursuivie par la décortication de la paroi osseuse vestibulaire à l'aide d'instruments rotatifs. Cet abord a permis de procéder à l'avulsion de la 38 et à l'énucléation du kyste, en préservant l'intégrité du nerf alvéolaire inférieur. Après rinçage et contrôle du défaut kystique, un drainage de Redon a été installé avant la fermeture primaire de la plaie par des sutures. Après la cicatrisation initiale sans compli-

cations, le patient a pu quitter l'hôpital cinq jours plus tard. L'ablation des sutures a eu lieu 14 jours après l'intervention. Les contrôles postopératoires réguliers ont permis d'observer une guérison normale, correspondant aux stades respectifs de la cicatrisation.

Deux mois après l'opération, le patient s'est plaint de douleurs à l'intérieur de la cavité kystique qui était encore profonde de quelque 15 mm. Le sondage révélait une aire osseuse dénudée dans la profondeur du défaut résiduel. Le rinçage provoquait l'écoulement de détritres et d'une quantité abondante de sécrétions putrides. En juin 1972, il a été procédé à la révision chirurgicale et à une décortication partielle de la cavité kystique, de nouveau sous anesthésie générale par intubation nasale. En raison des suites sans complications de la guérison, le patient a pu quitter la clinique au mois d'août, libre de toute symptomatologie.

Le patient ne s'est plus présenté pour un contrôle de suivi avant 1981. A ce moment-là il ne présentait aucun symptôme et la situation clinique était sans particularités, à l'exception d'une concavité intéressant la région du corps mandibulaire gauche. Entre-temps, les 37 et 35 avaient été extraites *alio loco*. L'examen radiologique a révélé une ostéolyse kystique impressionnante, de forme sphérique, dans la région du corps mandibulaire gauche (fig. 5). Au vu de ce constat, le patient a subi en décembre 1981 une nouvelle kystectomie du kératokyste récidivant. La guérison postopératoire et les examens annuels de suivi étaient sans particularités.

Durant la période entre décembre 1985 et décembre 2000, le patient ne s'est plus présenté pour les contrôles de recall. En décembre 2000, le patient a été adressé par son nouveau médecin-dentiste traitant pour une consultation à la Clinique de médecine dentaire, de stomatologie et de chirurgie buccale de l'Université de Zurich. Le patient se plaignait alors à nouveau d'une sensation progressive de pression dans le maxillaire inférieur gauche. L'examen sensomoteur des territoires des V^e et VII^e nerfs crâniens était dans les limites de la norme. Les tests de vitalité au CO₂ étaient positifs pour toutes les dents du troisième quadrant. L'examen endobuccal a permis de palper une concavité cicatricielle dans la région de la 37, de même qu'une tuméfaction de consistance dure mais élastique en direction du bord mandibulaire. L'OPG (fig. 6) révélait une ostéolyse kystique qui s'étendait de la 36 jusqu'à l'incisure semi-lunaire.

La tomographie numérique par coupes axiales (fig. 7) montre le défaut kystique dans un deuxième plan.

En février 2001, le patient a subi une nouvelle kystectomie de la lésion. Avant l'exérèse chirurgicale, le revêtement kystique a été fixé pendant cinq minutes par une application de solution de Carnoy. Après cette intervention également, la guérison s'est déroulée sans aucune complication. L'OPG de contrôle au mois d'août 2001 documente l'ossification quasi complète de la cavité du kératokyste (fig. 8).

A l'examen radiologique en décembre 2003, nous avons été surpris d'observer à nouveau la présence de trois zones isolées d'ostéolyse kystique dans la branche montante gauche de la mandibule (fig. 9).

En raison de la suspicion d'une récurrence récente du kératokyste dans la région de l'angle gauche de la mandibule, le patient a de nouveau été opéré le 25 février 2004. L'intervention, sous anesthésie générale par intubation nasale, comprenait la kystectomie de trois lésions kystiques dans la région de l'angle mandibulaire gauche après une application de solution de Carnoy. Cette fois encore, le patient a pu quitter la clinique sans aucune complication ni symptôme postopératoire.

Le contrôle radiologique annuel a eu lieu le 18 février 2005. Du point de vue radiologique, tant l'OPG (fig. 10) que le cliché postéro-antérieur du maxillaire inférieur (fig. 11) permettent de conclure que le patient est actuellement exempt de tout signe de récurrence.

Discussion

En raison de la formation de microkystes satellites dans les espaces de la spongieuse et les tissus mous du voisinage, les kératokystes se caractérisent par leur propension à une croissance localement agressive et aux récurrences. De ce fait, les kératokystes occupent une place à part parmi les kystes odontogènes. Des récurrences pouvant se manifester plus de dix ans après le traitement initial, nous recommandons de procéder à des examens de contrôle même au-delà de cette échéance, tout en espaçant les intervalles. Selon la méthode thérapeutique adoptée, les taux de récurrences des kératokystes se situent entre 2 à 63%. Les taux de récurrences les plus faibles sont observés après des opérations radicales, les plus élevés étant enregistrés après de simples kystotomies. D'avis de la majorité des auteurs, il faudrait réserver les cures radicales aux cas de récurrences. Il convient en outre de noter qu'à part les taux élevés de récurrences, les kératokystes sont susceptibles de subir une dégénération maligne en carcinome épidermoïde.

En raison du volume des kystes, on optera dans la plupart des cas pour un traitement en plusieurs étapes. Le diagnostic préopératoire ne pouvant pas être posé avec précision sans examen histologique, on procédera dans un premier temps à une biopsie du sac kystique. L'intervention chirurgicale comprend d'une part

le prélèvement de l'échantillon tissulaire et d'autre part la création d'une ouverture à demeure de la cavité kystique. La fenestration poursuit ainsi deux objectifs distincts: primo, le prélèvement d'une biopsie en vue de la confirmation du diagnostic et secundo, l'élimination de la pression hydrostatique à l'intérieur du kyste, du fait que cette pression est considérée dans la littérature récente comme étant le principal facteur causal de l'expansion kystique. En procédant, comme dans le présent cas, à une marsupialisation du kyste après l'élimination du sac kystique, il est possible de réaliser la kystectomie dans un deuxième temps chirurgical, en prenant soin de ménager les structures anatomiques adjacentes. Le choix du moment de l'intervention dépendra en premier lieu des résultats des contrôles bisannuels destinés à surveiller la réduction escomptée de l'ostéolyse.

Le problème essentiel du traitement des kératokystes réside dans le fait que des vestiges épithéliaux et des microkystes non décelables à l'œil nu risquent de perdurer dans la spongieuse adjacente même après l'ablation du sac kystique, constituant ainsi un point de départ de formation de récurrences. A ce propos, il semble que la méthode de la fixation intraopératoire du sac kystique par la solution de Carnoy, telle qu'elle a été présentée au début des années quatre-vingt, va dans la bonne direction. «History will show that fixation before enucleation has revolutionized the art of treating keratocysts.»

Certaines modalités thérapeutiques proposées récemment comprennent le curetage de la lésion, associé à la cryothérapie locale extemporanée par de l'azote liquide. La question de savoir si cette méthode permet d'obtenir une réduction du taux de récurrences n'est toutefois pas encore élucidée jusqu'à présent.