

Proefschriften 25 jaar na dato 8

Niet-dentogene cysten in het hoofd-halsgebied

Niet-dentogene cysten komen weinig voor. Van de in 1982 in een proefschrift beschreven 18 niet-dentogene cysten worden er tegenwoordig nog maar 2 tot die groep gerekend: de cyste van de ductus nasopalatinus en de nasolabiale cyste. De overige niet met dentogeen epitheel beklede cysten zijn in andere groepen ondergebracht, zoals de hals- en de neusbijholtencysten. In de algemene praktijk zal de cyste van de ductus nasopalatinus het meest worden gezien als een zwelling van het palatum juist achter de beide centrale incisieven. De zeldzamere nasolabiale cyste kenmerkt zich door een zwelling naast de neusvleugel. De behandeling van beide cysten is chirurgische verwijdering via een intraorale benadering. Met uitzondering van de mucosale antrumcyste wordt in alle gevallen van het vermoeden van een niet-dentogene cyste verwijzing naar een kaakchirurg geadviseerd ter bevestiging van de diagnose.

Allard RHB. Proefschriften 25 jaar na dato 8. Niet-dentogene cysten in het hoofd-halsgebied
Ned Tijdsch Tandheelkd 2006; 113; 278-281

Inleiding

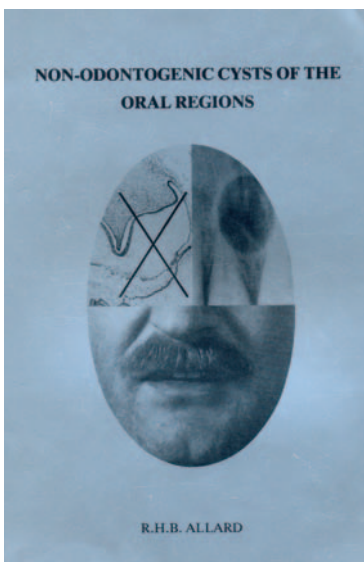
Een cyste is een niet van tevoren bestaande holte gevuld met vocht of brij, meestal bekleed met epitheel. Dat kan zowel dentogeen, als niet-dentogeen epitheel zijn. Het niet-dentogene epitheel kan een verschillende herkomst hebben: mogelijk tijdens de embryologische

ontwikkeling ingesloten epitheel, epitheel van (de aanleg van) klierbuizen, speekselklierpitheel, huidpitheel of neusbijholtebekleding. Niet met epitheel beklede cysten, zoals de parasitaire cysten, hebben meestal een fibreuze wand, maar worden internationaal, ondanks het ontbreken van epitheel, toch tot de cysten gerekend.

Niet-dentogene cysten komen in het orofaciale gebied

betrekkelijk weinig voor. Onder ruim 2.000 histologisch onderzochte orale afwijkingen bevonden zich slechts 10 niet-dentogene cysten (Tay, 1999). De meest voorkomende is de zogenaamde mucosale antrumcyste die in een onderzochte Nederlandse populatie op 8,7% van de orthopantomogrammen werd gezien. Daarna komt de cyste van de ductus nasopalatinus, waarvan de literatuur vermeldt dat die bij iets minder dan 1% van de bevolking aanwezig is. De overige niet-dentogene cysten worden slechts bij uitzondering gezien. Parasitaire cysten komen in de westerse wereld zelfs helemaal niet voor (Allard, 1982).

Bijna 25 jaar geleden is onderzoek gedaan naar de stand der wetenschap aangaande de niet van dentogeen epitheel afkomstige cysten in het hoofd-halsgebied. Van iedere niet-dentogene cyste zijn de naamgeving, de epidemiologie, de etiologie, de klinische, röntgenologische en histopathologische verschijningsvorm en de behandeling beschreven. Indien relevant, werd nader ingegaan op de embryologie van het betrokken gebied. Daarnaast is röntgenologisch en histopathologisch onderzoek van niet-dentogene cysten verricht. De onderzoeksgegevens zijn gerapporteerd in een proefschrift (afb. 1) (Allard, 1982). In dit artikel worden de belangrijkste gegevens van het proefschrift beschreven. Daarna wordt aan de hand van een literatuuronderzoek inzicht verschaft in de wetenschappelijke ontwikkelingen die zich met betrekking tot niet-dentogene cysten sinds 1982 hebben voorgedaan.



Afb. 1. Omslag van proefschrift 'Non odontogenic cysts in oral regions'.



Afb. 2. Klinisch beeld van een cyste van de ductus nasopalatinus.

Afb. 3. Opbeefoto met een cyste van de ductus nasopalatinus.

Het proefschrift

De cyste van de ductus nasopalatinus ontstaat uit de epitheliale overblijfselen van de ductus nasopalatini, een bij de mens rudimentair reukorgaan die in de mediaanlijn van het palatum, juist achter beide centrale incisieven, gepaard door de beide canales incisivi lopen. Klinisch is soms een zwelling van het palatinale slijmvlies zichtbaar (afb. 2). De cyste kan meestal goed op een röntgenfoto als een begrensde ronde, ovale of hartvormige radiolucentie worden waargenomen (afb. 3). Histopathologisch worden verschillende soorten epitheel aangetroffen: plaveiselcel-, kubisch, cilindrisch en trilhaar-epitheel. Ook worden regelmatig mukeuze kliertjes, zenuwbundels en bloedvaten aangetroffen.

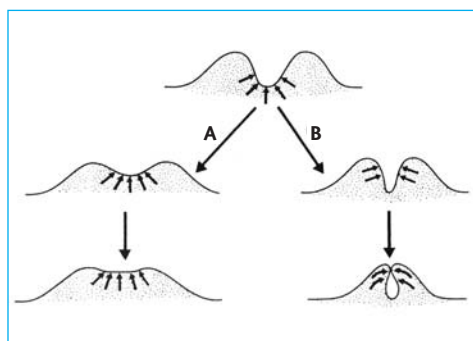
Ook de nasolabiale cyste is afkomstig van (embryonaal) klierbuis-epitheel, namelijk van de (aanleg van) de ductus nasolacrimalis. Klinisch presenteert de nasolabiale cyste zich als een pijnloze zwelling in het gebied van het vestibulum nasi. De zwelling kan resulteren in het verstrijken van de nasolabiale plooï en een zwelling in het vestibulum nasi en de buccale omslagplooï. Omdat het om een wekedelencyste gaat, zijn de röntgenologische bevindingen meestal negatief. Histologisch onderzoek laat in veel gevallen respiratoir epitheel en slijmbekercellen zien. Verwijdering via de mondholte is de aangevonden behandeling.

De zogenaamde fissurale cysten worden verondersteld te ontstaan uit epitheelresten die tijdens de embryonale fase zijn ingesloten. Aanvankelijk dacht men dat dit gebeurde tijdens het fusieproces van de verschillende aangezichtsprocessus, waarbij na ectoderm-ectodermcontact het ingesloten epitheel niet volledig degenereert. In het midden van de jaren '60 van de vorige eeuw werd duidelijk dat een dergelijke fusie niet plaatsvindt, maar dat de verschillende aangezichtsprocessus geleidelijk aan met elkaar één geheel vormen door middel van uitvlakking. Daarbij is het denkbaar dat door een relatief versnelde groei van het mesenchym in de uitstulpingen toch epitheel kan worden ingesloten (afb. 4). De meest beschreven fissurale cyste is de mediane palatinale cyste, röntgenologisch gekenmerkt door een radiolucentie in de mediaanlijn van het palatum. De cyste zou

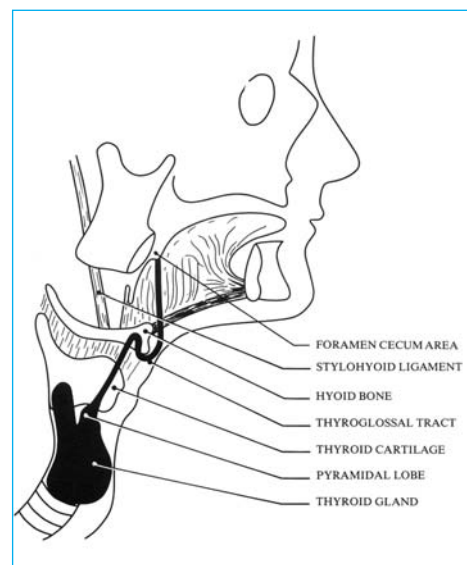
zijn ontstaan uit epitheelresten die zijn ingesloten tijdens de sluiting van het palatum. Op een soortgelijke wijze zouden epitheelresten kunnen worden ingesloten tijdens de versmelting van beide processus mandibulares, waardoor de mediane mandibulaire cyste zou kunnen ontstaan. Ten slotte werd de globulomaxillaire cyste verondersteld te zijn ontstaan uit epitheelresten die zijn ingesloten bij de versmelting van de processus nasalis medialis en de processus maxillaris. Daarom presenteert deze cyste zich tussen de laterale incisief en de cuspidaat in de bovenkaak. In de literatuur zijn van elke soort fissurale cyste slechts enkele tientallen gevallen beschreven. Onder ruim 8.000 over een periode van 10 jaar in het ziekenhuis van de Vrije Universiteit te Amsterdam histologisch onderzochte orale afwijkingen werd echter geen enkel voorbeeld van een van deze cysten gevonden. Ondanks dit gegeven en de in de literatuur rijzende twijfel aan het bestaan van fissurale cysten, werden deze, omwille van de complexiteit en met het benodigde voorbehoud, toch in het proefschrift aan de orde gesteld.

De cyste van de ductus thyroglossalis ontstaat uit de epitheliale resten van de tractus thyroglossalis, een invaginatie van de bekleding van het achterste gedeelte van de tong, die in het begin van de 4e week in utero de eerste aanleg van de schildklier vormt (afb. 5). Klinisch manifesteert de cyste zich als een beweeglijke, niet pijnlijke zwelling in de mediaanlijn van de hals. Een enkele keer bevindt de cyste zich in het achterste gedeelte van de tong. Scintigrafie voorafgaande aan

Afb. 4. Het schema laat zien dat ook bij het proces van embryologische uitvlakking insluiting van epitheel mogelijk zou kunnen zijn. Links (A) de normale uitvlakking en rechts (B) een verstoorde uitvlakking waarbij door een snellere groei van het mesenchym in de uitstulpingen toch ectoderm-ectodermcontact zou kunnen ontstaan.



Afb. 5. Schema van het embryologische verloop van de tractus thyroglossalis.



1. Cysten afkomstig van overblijfselen van epitheliale strengen of ductus
 - a. Cyste van de ductus nasopalatinus
 - b. Nasolabiale cyste
 - c. Thyroglossale cyste
2. Fissurale cysten
 - a. Mediane palatinale cyste bij pasgeborenen
 - b. Mediane palatinale cyste*
 - c. Mediane mandibulaire cyste*
 - d. Globulomaxillaire cyste*

* van dubieuze origine
3. Epitheliale inclusiecysten
 - a. Lymfo-epitheliale cyste
 - b. Epidermoïdcyste
 - c. Dermoidcyste
 - d. Teratoïdcyste
 - e. Spijsverteringskanaalcyste
4. Niet-dentogene cysten van de sinus maxillaris
 - a. Mucosale antrumcyste
 - b. Postoperatieve sinuscyste
5. Parasitaire cysten
 - a. Nematoda
 - b. Cestoidea
6. Speekselkliercysten
 - a. Mucocèle
 - b. Ranula

Tabel 1. Niet-dentogene cysten in en rond de mondholte (Allard, 1982).

een eventuele excisie is noodzakelijk om vast te stellen of het hier om het enige functionele schildklierweefsel gaat. De zogenaamde Sistrunk-benadering is de aangewezen methode om de cyste te verwijderen. Maligne ontanding tot een thyroglossaal carcinoom komt betrekkelijk vaak voor.

De lymfo-epitheliale cyste in de hals, ook bekend onder de naam branchiogene of laterale halscyste, komt vrij regelmatig voor. In het merendeel van de gevallen wordt de diagnose vóór het 30e levensjaar gesteld. Klinisch is er sprake van een niet-pijnlijke, weekelastische, beweeglijke zwelling in het laterale deel van de hals, juist anterior van de musculus sternocleidomastoideus. Histologisch kenmerkt de cyste zich door subepitheliale lymfoïde weefsel dat meestal is gerangschikt in een typisch folliculair patroon. Ook in de mondholte, en vooral in de mondbodem en op de zijkant van de tong, komen een enkele keer lymfo-epitheliale cysten voor. Histologisch vallen ook bij deze variëteit de lymfepollicels in de cystewand op. Chirurgische verwijdering is slechts geïndiceerd als er symptomen zijn.

Epidermale cysten worden onderverdeeld in:

- > epidermoïdcysten bekleed met epitheel;
- > dermoïdcysten met adnexen in de cystewand;
- > teratoïdcysten met derivaten van alle 3 de kiembladen in de cystewand;
- > spijsverteringskanaalcysten met een wand die grote gelijkens vertoont met de wand van de maag en/ of de darmen.

Epidermale cysten komen in de mondholte weinig voor. Dermoidcysten zijn meestal in de mediaanlijn van de mondbodem gelokaliseerd en presenteren zich als een langzaam groeiende, niet pijnlijke zwelling die soms de tong opdrukt of een 'dubbele kin' ver-

oorzaakt. Recidieven na chirurgische excisie komen zelden voor.

De mucosale antrumcyste is in het algemeen symptomeloos. De cyste kan het beste op een orthopantomogram worden waargenomen als een ovale of koepelvormige radiolucentie op de bodem van de sinus maxillaris. In een serie van 1.080 orthopantomogrammen werden 94 (8,7%) van dergelijke radiolucenties waargenomen. De cyste komt significant vaker voor bij mannen dan bij vrouwen. De postoperatieve sinuscyste wordt geacht te ontstaan uit tijdens neusbijholtenoperaties ingesloten epitheel. Deze cyste komt bij hoge uitzondering voor.

In de literatuur zijn minder dan 10 orale parasitaire cysten beschreven. In alle gevallen kwamen deze voor in niet-westerse landen. Histologisch onderzoek laat een cysteholte bekleed met fibreus weefsel zien, waarin zich de larve van een parasiet van de klasse Nematoda of Cestoidea bevindt.

Op basis van deze beschrijving werd in het proefschrift voorgesteld de niet-dentogene cysten in te delen zoals weergegeven in tabel 1. Hierbij zij opgemerkt dat de speekselkliercysten niet verder in het proefschrift zijn besproken.

Latere publicaties

In de literatuur na 1982 zijn tientallen casus van alle soorten niet-dentogene cysten beschreven. Maar met uitzondering van de nieuwe consensus over de fissurale cysten en de ontwikkeling van nieuwe diagnostische technieken, zoals computertomografie (CT) en 'magnetic resonance imaging' (MRI), is er niet veel 'nieuws onder de zon'. Onderzoek in de belangrijkste literatuur leidt tot de volgende conclusies. De cyste van de ductus nasopalatinus is een van de meest voorkomende niet-dentogene cysten in het orofaciale gebied (Righini et al, 2004). De nasolabiale cyste komt veel minder vaak voor (Nixdorf et al, 2003; Saridin en Van der Waal, 2004). De mediane palatinale cyste bij pasgeborenen bestaat, maar is nog steeds zeldzaam (Alves et al, 2004). De mediane palatinale cyste wordt, ondanks het feit dat deze al 13 jaar niet meer in de WHO-classificatie voorkomt, nog steeds beschreven (Hadi et al, 2001). Datzelfde kan worden gezegd van de mediane mandibulaire cyste (Gardner, 1988). En de disputen over het al dan niet bestaan van de globulomaxillaire cysten steken af en toe nog eens de kop op, overigens steeds ten nadele van de fissurale cysten (D'Silva en Anderson, 1993; Wysoki en Goldblatt, 1993). De thyroglossale cyste blijkt toch ook op latere leeftijd te kunnen voorkomen en helaas wordt er nog steeds relatief vaak een papillair carcinoom in aangetroffen (Van der Wal et al, 1987; Mazzaferrri et al, 2004). Lymfo-epitheliale en epidermoïdcysten komen in de mondholte nog steeds bij hoge uitzondering voor, en dan meestal in de mondbodem (Epivinos et al, 2005). In de mediaanlijn van diezelfde locatie worden nog steeds de meeste dermoïdcysten gezien (Longo et al, 2003). Zelfs de spijsverteringskanaalcyste is nog redelijk recent beschreven (Noorchasm et al, 2004). De prevalentie van de mucosale antrumcyste in verschillende bevolkingsgroepen ligt tussen 5,2 en 14%. Dit past goed bij de in het proefschrift beschreven 8,7% (MacDonald-Jankowski, 1993; MacDonald-Jankowski, 1994). De postoperatieve sinuscyste is nu niet alleen na neusbijholtenchirurgie, maar ook na chirurgische behandelingen rond de sinus maxillaris beschreven, bijvoorbeeld een LeFort-osteotomie (Thio et al, 2003). Parasitaire cysten zijn nog steeds zeer zeldzaam (Hansen en Allard, 1984).

Discussie

Opmerkelijk is de veelvuldig beschreven verschillende seksevoorkeur van een aantal niet-dentogene cysten: de cyste van de ductus naso-

palatinus komt 3 keer zo vaak voor bij mannen, de mucosale antrum-cyste komt 2 keer zo vaak voor bij mannen en de nasolabiale cyste komt 2 tot 3 keer zo vaak voor bij vrouwen. Nergens is voor dit fenomeen een verklaring gegeven.

De zogenaamde fissurale cysten (mediane palatinale, mediane mandibulaire en globulomaxillaire cysten) zijn in de voorlaatste WHO-classificatie niet meer opgenomen (Kramer et al, 1992). Dit omdat embryologen en pathologen al sinds lang twijfelen aan de mogelijkheid dat in de embryonale fase epitheel blijvend wordt ingesloten. Niet alleen omdat tussen de verschillende processus geen fusie plaatsvindt en er dus geen ectoderm-ectodermcontact is, maar ook vanwege de overtuiging dat bij het proces van uitvlakking eventueel ingesloten epitheel atrofieert. Deze gedachte wordt ondersteund door het feit dat de uit resten van epitheel ontstane microcysten bij pasgeborenen, de zogenaamde 'Epstein pearls', gedurende de 1e maanden verdwijnen. Het is niet goed denkbaar dat overblijfselen daarvan vele jaren later aanleiding kunnen geven tot enossale cysten (Shear en Seward, 1992). Daar komt in het geval van de mediane mandibulaire cyste nog bij dat de vorming van het kraakbeen van Meckel overleving van ingesloten epitheel wel erg onwaarschijnlijk maakt (Allard, 1982). De mediane palatinale cyste wordt heden ten dage beschouwd als een meer dorsaal gelegen variant van de cyste van de ductus nasopalatinus. In bijna alle gevallen van een aanvankelijk als globulomaxillaire cyste gediagnosticeerde afwijking bleek het bij nader onderzoek om andere pathologie te gaan, veelal een radicaire cyste of een keratocyste. Hetzelfde kan worden gezegd voor de mediane mandibulaire cyste. Toch geven gezaghebbende auteurs toe dat het bestaan van fissurale cysten niet helemaal kan worden uitgesloten (Kramer et al, 1992; Shear en Seward, 1992). Onder het motto 'in dubio abstinens' is echter gekozen voor de meest waarschijnlijke situatie en wordt het bestaan van fissurale cysten ontkend tot het tegendeel wordt bewezen.

In de WHO-classificatie uit 1992 worden alleen de cyste van de ductus nasopalatinus en de nasolabiale cyste nog als niet-dentogene cysten opgenomen. Alle overige niet met dentogeen epitheel beklede cysten worden in andere groepen ondergebracht, zoals de hals- en de neusbijholtencysten. In de nieuwste WHO-classificaties komen (niet-)dentogene cysten zelfs in het geheel niet meer voor. Geconcludeerd moet dan ook worden dat van de in het proefschrift voorgestelde classificatie van niet-dentogene cysten niet veel is overgebleven. De reden hiervan is dat cysten tegenwoordig – zo ze al worden geïdentificeerd – worden geïdentificeerd op basis van de locatie (bijvoorbeeld de hals of de neusbijholten) en niet, zoals in het proefschrift, op basis van de histologie (niet bekleed met dentogeen epitheel). Dit is een praktische keuze.

Literatuur

- Allard RHB. Non-odontogenic cysts of the oral regions. Amsterdam: Vrije Universiteit, 1982. Academisch proefschrift.
- Alves KM, Peixoto V, Gomide MR, Carvalho Carrara CF, Costa B. Prevalence of palatal and alveolar cysts in babies with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J* 2004; 41: 490-493.
- D'Silva NJ, Anderson L. Globulomaxillary cyst revisited. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 76: 182-184.
- Epivinos A, Zaraboukas T, Antoniadis D. Coexistence of lymphoepithelial and epidermoid cysts on the floor of the mouth. *Oral Dis* 2005; 11: 330-333.
- Gardner DG. An evaluation of reported cases of median mandibular cysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1988; 65: 208-213.
- Hadi U, Yuones A, Ghosseini S, Tawil A. Median palatine cyst: an unusual presentation of a rare entity. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2001; 39: 278-281.
- Hansen LS, Allard RHB. Encysted parasitic larvae in the mouth. *J Am Dent Assoc* 1984; 108: 632-636.
- Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumours*. Berlin: Springer Verlag, 1992.
- Longo F, Maremont P, Mangone GM, De Maria G, Califano L. Midline (dermoid) cysts of the floor of the mouth: report of 16 cases and review of surgical techniques. *Plast Reconstr Surg* 2003; 112: 1560-1565.
- MacDonald-Jankowski DS. Mucosal antral cysts in a Chinese population. *Dentomaxillofac Radiol* 1993; 22: 208-210.
- MacDonald-Jankowski DS. Mucosal antral cysts observed within a London inner-city population. *Clin Radiol* 1994; 49: 195-198.
- Mazzaferri EL. Thyroid cancer in thyroid duct remnants: a diagnostic and therapeutic dilemma. *Thyroid* 2004; 14: 335-336.
- Nixdorf DR, Peters E, Lung KE. Clinical presentation and differential diagnosis of nasolabial cyst. *J Can Dent Assoc* 2003; 69: 146-149.
- Noorchashm N, Huff DS, Bartlett S. A mixed heterotopic gastrointestinal and respiratory cyst of the oral cavity with an intraosseous component. *Plast Reconstr Surg* 2004; 114: 1195-1197.
- Righini CA, Bettega G, Boubagra K, Reyt E. Nasopalatine duct cyst: one case report. *Acta Otorhinolaryngol Belg* 2004; 58: 129-133.
- Saridin CP, Waal I van der. De nasolabiale cyste: een typische zwelling naast de neus. *Ned Tijdschr Tandheelkd* 2004; 111: 101-102.
- Shear M, Seward GR. *Cysts of the oral regions*. Oxford: Wright, 1992.
- Tay AB. A 5-year survey of oral biopsies in an oral surgical unit in Singapore: 1993-1997. *Ann Acad Med Singapore* 1999; 28: 665-671.
- Thio D, Phelps PD, Bath AP. Maxillary sinus mucocele presenting as a late complication of a maxillary advancement procedure. *J Laryngol Otol* 2003; 117: 402-403.
- Wal N van der, Wiener JD, Allard RHB, Henzen-Logmans SC, Waal I van der. Thyroglossal cysts in patients over 30 years of age. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987; 16: 416-419.
- Wysoki GP, Goldblatt LI. The so-called 'globulomaxillary cyst' is extinct. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 76: 185-186.

Summary

Dissertations 25 years after date 8. Non-odontogenic cysts of the oral regions

Non-odontogenic cysts are rare. Today, only 2 of the 18 non-odontogenic cysts that were described in 1982 are still classified as such: the nasopalatine duct cyst and the nasolabial cyst. The others are now classified in other groups. In the general practice the nasopalatine duct cyst is mostly seen as a swelling of the palate, just behind the central incisors. The nasolabial cyst is more rare and can be characterized as a paranasal swelling. Treatment of both cysts consists of surgical removal by intraoral approach. It is advisable to refer all cases of suspected non-odontogenic cysts, with the exception of the mucosal antral cyst, to an oral and maxillofacial surgeon in order to have the diagnosis confirmed.

Bron

Uit de afdelingen Mondziekten en Kaakchirurgie van het VU medisch centrum/ACTA in Amsterdam en het Leids Universitair Medisch Centrum in Leiden

Datum van acceptatie: 13 maart 2006

Adres: dr. mr. R.H.B. Allard, VUmc, postbus 7057, 1007 MB Amsterdam
rhb.allard@vumc.nl