

Afwezigheid van (kaak)bot kan duiden op een maligniteit

Na het verlies van enkele molaren in het tweede kwadrant verzocht een 73-jarige man zijn huistandarts het kauwvermogen te herstellen. Een implantaatgedragen brug ter plaatse van de edentate regio van de gebitselementen 25-27 werd overwogen. Intraoraal werd echter een weke massa aangetroffen. Op het orthopantomogram bleek de benige overgang tussen mondholte en de holte van de sinus maxillaris verdwenen. In eerste instantie werd op basis van een incisiebiopt de diagnose 'nodulaire fasciitis' gesteld. Vanwege klinisch agressief gedrag in een korte periode daarna werd echter een maligniteit verondersteld. Histopathologisch onderzoek van een resectiepreparaat bevestigde dit vermoeden. Er bleek sprake van een niet nader te classificeren sarcoom. Algemene stelregel is dat agressieve groei van een afwijking en afwezigheid van een duidelijke benige afscheiding tussen de sinus maxillaris en de mondholte wijzen op een maligniteit totdat het tegendeel is bewezen.

Springer GJ, Meijer GJ, Slootweg P, Geertman ME, Koole R, Cann EM van. Afwezigheid van (kaak)bot kan duiden op een maligniteit Ned Tijdschr Tandheelkd 2007; 114: 346-348

Gegeven

In verband met het verlies van enkele molaren in het tweede kwadrant bezocht een 73-jarige man zijn huistandarts met de vraag het kauwvermogen te herstellen. In eerste instantie werd een implantaatgedragen brug ter plaatse van de edentate regio van gebitselementen 25-27 overwogen. Vanwege een duidelijk zichtbare zwelling in het tweede kwadrant werd de patiënt echter verwezen naar een kaakchirurg.

Anamnese, onderzoek en diagnostiek

In het tweede kwadrant was vanwege grote mobiliteit enkele weken tevoren gebitselement 25 geëxtraheerd. Het gebitselement 27 was 1 jaar eerder om dezelfde reden verloren gegaan en gebitselement 26 was al langer afwezig. De man was gezond met een blanco medische voorgeschiedenis.

Bij extraoraal onderzoek werden geen bijzonderheden gezien. Intraoraal was in het tweede kwadrant een forse zwelling van de processus alveolaris waarneembaar, zich uitstrekkend van gebitselement 24 tot aan het tuber maxillare. In transversale richting strekte de zwelling zich uit van de omslagplooi tot aan de mediaanlijn. Bij palpatie voelde de zwelling week-elastic aan (afb. 1). De patiënt vertelde dat de niet-pijnlijke zwelling al een jaar onveranderd aanwezig was. De dentitie was verzorgd met veel plastische restauraties en kronen. De gebitselementen 25, 26 en 27 waren afwezig en gebitselement 24 had een mobiliteit van graad I. De pocketdiepten varieerden tussen 3 en 5 mm. Op het orthopantomogram was geen duidelijke benige afscheiding tussen de sinus maxillaris en de mondholte waarneembaar (afb. 2).

Onder lokale anesthesie werd een ruim incisiebiopt genomen. Het weefsel werd zowel vers als op formaline histopa-



Afb. 1. Intraoraal een stevige massa in het tweede kwadrant.

thologisch onderzocht. De uitslag hiervan luidde 'nodulaire fasciitis'. Op de hierna vervaardigde computertomografische scan (CT-scan) was in de bovenkaak links een wekedelen-massa te zien met een grootste diameter van 2,5 cm en een destructie van de voor- en de achterwand van de linker sinus maxillaris en van de linker laterale neuswand (afb. 3).

Beloop en behandeling

Bij het door een korte vakantie enigszins vertraagde volgende bezoek aan de kaakchirurg werd intraoraal een sterke

toename van de wekedelenmassa gezien (afb. 4). Inmiddels was er ook sprake van pijn en hypo-esthesie in het verzorgingsgebied van de linker nervus infraorbitalis. Een nieuwe CT-scan toonde een aanmerkelijke toename van de wekedelenmassa, nu ook met destructie van de orbitabodem. De wekedelenmassa bevond zich in de bovenkaak links, de linker sinus maxillaris, de linker neusholte, de linker orbita en het etmoïd tot aan de lamina cribrosa. Ondanks het feit dat de uitslag van het histopathologisch onderzoek niet op een maligniteit had gewezen, was dit agressieve gedrag van de afwijking aanleiding te denken aan een sarcoom. Onder algehele anesthesie werd via een Weber-Fergusson-incisie een hemimaxillectomie links uitgevoerd met uitruiming van de orbitaholte en het etmoïd. De resectieholte werd opgevuld met een obturator- of klosprothese, opgebouwd met guttapercha. De binnenzijde van de linkerwang werd bedekt met een van een van de bovenbenen afkomstig huidtransplantaat. Het resectiepreparaat werd histopathologisch onderzocht. Dit onderzoek bevestigde in eerste instantie de klinische waarschijnlijkheidsdiagnose, namelijk een niet nader te typeren sarcoom. Het resectiepreparaat bevestigde de aanwezigheid van de ook in het incisiebiopt aanwezige myxoïde velden met sporadische mitosen zonder atypie. Bij nader onderzoek bleken zich in het resectiepreparaat echter ook velden met talrijke mitosefiguren te bevinden, waaronder ook atypische tumorcellen met cytonucleaire atypie. Op basis van deze bevindingen werd de diagnose bijgesteld tot 'hooggradig sarcoom'. Verdere specificatie van deze diagnose was door het ontbreken van morfologische kenmerken niet mogelijk. Het incisiebiopt was dus retrospectief niet-representatief.

Postoperatief kreeg de patiënt aanvullende radiotherapie vanwege krappe radicale resectieranden. In het tweede jaar na deze behandeling overleed de patiënt door lokale tumorgroei in de schedelbasis.

Beschouwing

Nodulaire fasciitis is een benigne proliferatie van (myo) fibroblastaire cellen. De laesie komt voor op meerdere locaties in het lichaam, in 20% van de gevallen in de mond. De laesie toont geen leeftijdsvoorkeur en is gelijk verdeeld tussen mannen en vrouwen (Fletcher et al, 2002). De exacte incidentie is niet bekend. Voor intraorale nodulaire fasciitis geldt een voorkeurslocatie voor het buccale slijmvlies, de tong en het alveolaire slijmvlies (Martinez-Blanco et al, 2002). De afwijking presenteert zich als een pijnloze stevige zwelling, nodulair van vorm en submucosaal gelegen (Shafer et al, 1983; Carbonell et al, 1997). Ondanks de soms snelle groei wordt nodulaire fasciitis als een zichzelf beperkende afwijking beschouwd (Davies et al, 1989; Regezi en Sciubba, 1993; Graadt van Roggen et al, 1999).

Sarcomen vormen 1% van de maligne tumoren in het hoofd-halsgebied (Figueiredo et al, 1988). Hiervan maken intraorale sarcomen slechts 0,14% uit (Gorsky en Epstein, 1998). De 5-jaarsoverleving bedraagt ongeveer 60% (Yama-



Afb. 2. Het OPT laat een uitgebreid gerestaureerd gebit zien. Ter plaatse van het tweede kwadrant is geen benige afscheiding tussen de linker sinus maxillaris en de mondholte waarneembaar.



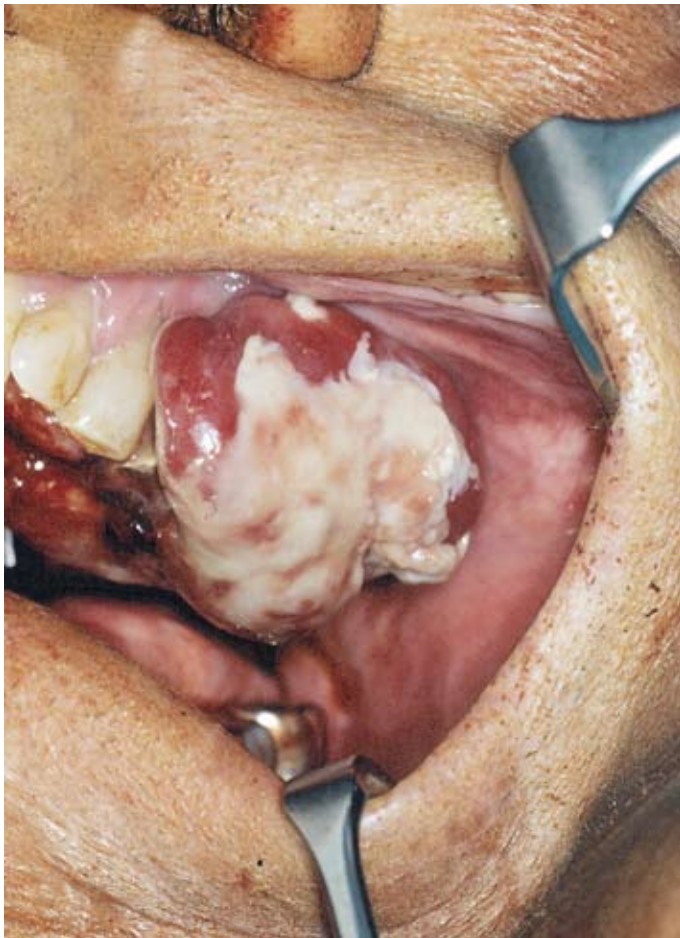
Afb. 3. De CT-scan laat een doorsnede op maxillaire niveau zien met destructie van de voor- en achterwand van de linker sinus maxillaris. De linker sinus maxillaris is gevuld met weke delen.

guchi et al, 2004). Vooral sarcomen in het hoofd-halsgebied hebben een grote kans op een lokaal recidief. Waarschijnlijk spelen de anatomische beperkingen tijdens de resectie van het sarcoom daarbij een rol. Bij sarcomen in het hoofd-halsgebied is vaak lokale tumorgroei of metastasering de doodsoorzaak (Slootweg en Muller, 1984).

Histopathologisch is het onderscheid tussen nodulaire fasciitis en sarcoom niet altijd evident omdat nodulaire fasciitis zich kan presenteren als een niet-omkapselde, celrijke afwijking waarin veel celdelingfiguren waarneembaar zijn (Price et al, 1969; Davies et al, 1989; Dayan et al, 2005).

Discussie

Door de verdiepte pockets werd begrijpelijkerwijs in eerste instantie gedacht aan parodontitis als oorzaak van het verlies van de gebitselementen. Achteraf gezien kon de verhoogde mobiliteit en het verlies van de gebitselementen 27 en 25 worden verklaard door de groei van het osteosarcoom. Het verdwijnen van een duidelijke benige afscheiding tussen de sinus maxillaris en de mondholte bleek een omineus teken.



Afb. 4. Intraoraal beeld: de massa bleek in korte tijd sterk vergroot.

Bij het in korte tijd mobiel worden van gebitselementen dient verlies van steunweefsel ten gevolge van een benigne of maligne tumor te worden uitgesloten. Ook bij het ontbreken van de gebruikelijke röntgenologisch waarneembare anatomische botstructuren, zoals trabeculae en corticale lijnen, dient te worden uitgegaan van een (maligne) tumor tot het tegendeel is bewezen. Verwijzing naar een kaakchirurg is dan meer dan gerechtvaardigd.

De gouden standaard voor het verkrijgen van een diagnose blijft een biopsie. Bij een klinisch beeld dat niet strookt met een geruststellende histopathologische uitslag dient een patiënt echter nauwgezet te worden vervolgd. Ook aanvullend onderzoek, overleg met de patholoog-anatoom en een herhaald biopsie zijn dan wellicht geïndiceerd.

Literatuur

- Carbonell E, Sabater V, Milián MA, Jiménez Y, Lloria E, Cardona F. Oral nodular fasciitis. *Med Oral* 1997; 2: 105-108.
- Davies HT, Bradley N, Bowerman JE. Oral nodular fasciitis. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1989; 27: 147-151.
- Dayan D, Nasrallah V, Vered M. Clinico-pathologic correlations of myofibroblastic tumors of the oral cavity: 1. Nodular fasciitis. *J Oral Pathol Med* 2005; 34: 426-435.
- Figueiredo MTA, Marques LA, Campos-Filho N. Soft-tissue sarcomas of the head and neck in adults and children: experience at a single institution with a review of literature. *Int J Cancer* 1988; 41: 198-200.

- Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F. World Health Organization classification of tumours. Pathology and genetics, tumours of soft tissue and bone. Lyon: International Agency for Research on Cancer, 2002.
- Gorsky M, Epstein JB. Head and neck and intra-oral soft tissue sarcomas. *Oral Oncol* 1998; 34: 292-296.
- Graadt van Roggen JF, Hogendoorn PCW, Fletcher CDM. Myxoid tumours of soft tissue. *Histopathology* 1999; 35: 291-312.
- Martínez-Blanco M, Bagan JV, Alba JR, Basterra J. Maxillofacial nodular fasciitis: a report of 3 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60: 1211-1214.
- Price EB Jr, Silliphant WM, Shuman R. Nodular fasciitis. A clinicopathological analysis of sixty-five cases. *Am J Clin Pathol* 1961; 35: 122-136.
- Regezi J, Sciubba J. Oral pathology. Clinical-pathologic correlations. Philadelphia: Saunders, 1993.
- Shafer WG, Hine M, Levy BM. A textbook of oral pathology. Philadelphia: Saunders, 1983.
- Slootweg PJ, Müller H. Fibrosarcoma of the jaws. A study of 7 cases. *J Maxillofac Surg* 1984; 12: 157-162.
- Yamaguchi S, Nagasawa H, Suzuki T et al. Sarcomas of the oral and maxillofacial region: a review of 32 cases in 25 years. *Clin Oral Investig* 2004; 8: 52-55.

Summary

Absence of (jaw)bone may be indicative for malignancy

Following the loss of several molars in the left maxilla, a 73-year-old man asked his general dentist practitioner to restore his chewing efficiency. Initially, reconstruction of the left maxilla with an implant supported fixed partial denture was considered. However, intraorally a soft-tissue swelling was observed extending from the midline of the palate to the left buccal sulcus. A panoramic radiograph showed absence of bone between the oral cavity and the maxillary sinus. At first, after an incision biopsy and histopathologic examination, the condition was diagnosed as nodular fasciitis. However, because of subsequent aggressive growth of the lesion malignancy was suspected. Histopathological examination confirmed the assumption. The lesion appeared to be a sarcoma. The general diagnostic rule is that the aggressive behaviour of a lesion and the absence of a bony delineation on radiographic examination between the oral cavity and the maxillary sinus are signs of malignancy, until evidence to the contrary has been provided.

Bron

G.J. Springer¹, G.J. Meijer¹, P. Slootweg², M.E. Geertman³, R. Koole¹, E.M. van Cann¹

Uit 'de afdeling Mondziekten en Kaak- en Aangezichts chirurgie en 'de afdeling Pathologie van het Universitair Medisch Centrum Utrecht en 'de Tandartspraktijk Vondellaan in Zeist

Datum van acceptatie: 25 oktober 2006

Adres: dr. G.J. Meijer, UMC Utrecht, postbus 85500, 3508 GA Utrecht
drgjmeijer@orange.nl