

# Een spookachtige afwijking: regionale odontodysplasie

Bij een 3-jarige peuter werd op grond van het optreden van acute dentale abscessen in combinatie met het klinisch en röntgenologisch beeld van een aantal tijdelijke gebitselementen de diagnose 'regionale odontodysplasie' vermoed. Histopathologisch onderzoek van de geëxtraheerde tijdelijke gebitselementen bevestigde deze diagnose. Het vroegtijdig onderkennen van deze regionale ontwikkelingsstoornis in de odontogenese is van belang om de ontwikkeling van de blijvende gebitselementen zo goed mogelijk te begeleiden.

Hoff M, Haring IS van der, Wal JE van der, Vissink A. Een spookachtige afwijking: regionale odontodysplasie. *Ned Tijdschr Tandheelkd* 2010; 117: 211-214

## Gegeven

Een peuter werd binnen 2 jaar tijd 2 keer naar een afdeling Mondziekten, Kaakchirurgie en Bijzondere Tandheelkunde verwezen met klachten uitgaande van een carieuze tijdelijke dentitie. Hierbij was het opmerkelijk dat de dentitie in de onderkaak sterk was aangetast, terwijl de dentitie in de bovenkaak klinisch gezond was. Tijdens het tweede bezoek werd ook röntgenologisch onderzoek verricht om een eventuele onderliggende afwijking op het spoor te komen.

## Anamnese

Voor het eerste bezoek aan de afdeling Mondziekten, Kaakchirurgie en Bijzondere Tandheelkunde in augustus 2007 was de 2 jaar en 10 maanden oude peuter door zijn huistandarts verwezen met het verzoek de zwaar carieuze gebitselementen 84 en 85 te behandelen. Volgens de verwijzing was er sprake van een verdikte wang en was de ramus mandibulae matig palpabel. Ook waren er lichte slikklachten aanwezig. Een afdruk van een digitale foto van de regio van gebitselement 85 was bijgevoegd.

Bij de anamnese meldde de moeder van de peuter dat de tijdelijke dentitie in de onderkaak "al bij de doorbraak geen mooi glazuur" had. De ouders gaven verder aan dat de patiënt in verband met astmatische klachten frequent antibiotica had gebruikt. Zijn behandelend arts hadden de ouders meegedeeld dat het gebruik van deze medicatie gevolgen kon hebben voor de ontwikkeling van het gebit.

## Diagnostiek

Zuigflescarieës leek uitgesloten op grond van de informatie die de ouders gaven en van het gegeven dat alleen de gebitselementen in de onderkaak waren aangetast. De ouders gaven vervolgens nogmaals aan dat "de melktanden in de onderkaak al vanaf de doorbraak vreemd van uiterlijk waren". Bovendien waren de tijdelijke molaren in de onderkaak rechts eigenlijk nauwelijks zichtbaar geweest in de mond. Deze molaren waren vrijwel altijd door slijmvlies bedekt.

De patiënt kreeg in verband met de astmatische klachten dagelijks salbutamol toegediend met een voorzetkamer.

Bij extraoraal onderzoek werd een vaste, elastische zwelling geconstateerd van de rechterwang. De zwelling was pijnlijk bij palpatie. Intraoraal onderzoek toonde diep carieuze gebitselementen 84 en 85. De omslagplooi was verstreken en fluctuatie was op te wekken bij palpatie. De diagnose submucosus abces uitgaande van de diepcarieuze gebitselementen 84 en 85 werd gesteld.

## Behandeling

Het abces werd onder poliklinische narcose geïncideerd en de gebitselementen 84 en 85 werden geëxtraheerd. Tijdens deze narcose werd tevens de mond zorgvuldig geïnspecteerd. Hierbij werd een glazuurafwijking waargenomen in de regio van de gebitselementen 73-85. De overige tijdelijke gebitselementen hadden een normaal aspect en waren cariesvrij.

Bij controle 1 week na de ingreep bleek de peuter goed hersteld te zijn. De mucosa ter plaatse van de extractiewonden van de gebitselementen 84 en 85 had een rustig aspect. In het onderfront werd ter hoogte van de gebitselementen 71 en 81 een fisteltje geconstateerd. In overleg met de moeder werd een afwachtend beleid ingesteld. Daarnaast zou in de literatuur worden nagezocht wat de mogelijke onderliggende oorzaak was van deze lokale afwijking in structuur en morfologie van de tijdelijke gebitselementen. Bij dit controlebezoek hadden de ouders zijn medisch dossier meegebracht. Hij bleek meerdere malen antibiotica en prednisolon te hebben gebruikt in verband met luchtwegklachten. Bovendien had zijn moeder een lijstje meegenomen met de doorbraaktijden van de gebitselementen, waarbij was aangegeven dat de tijdelijke gebitselementen in de onderkaak op een latere leeftijd dan normaal waren doorgebroken. Na 1 jaar zou bij de patiënt op 4-jarige leeftijd röntgenologisch onderzoek naar de dentitie worden verricht.

## Anamnese bij tweede bezoek

Ruim 1 jaar later werd de patiënt toen hij bijna 4 jaar oud was opnieuw door zijn huistandarts verwezen naar dezelfde afdeling. Nu met het verzoek om een consult met betrekking tot pijnklachten van de tijdelijke dentitie in de onderkaak en het starten van een vervolgonderzoek naar de etiologie van het afwijkende beeld van gebitselementen 73-83, zoals afgesproken na het eerste bezoek.

Bij de anamnese meldde de moeder dat haar zoon recidiverende pijnklachten had in het onderfront, met fistelvorming. Zij maakte de fistels elke 3 weken open. De peuter, inmiddels bijna een kleuter, at, dronk en sliep goed en kreeg af en toe een pijnstiller. Hij had geen koorts en geen zwelling. Behalve zijn reeds bekende astmatische lijden was hij goed gezond.

### Diagnostiek bij tweede bezoek

Bij het klinisch onderzoek kwam de patiënt - in de tandartsstoel - wat timide en angstig over. Intraoraal onderzoek toonde afgesleten, geel tot bruin verkleurde incisieven in de onderkaak (afb. 1). De tijdelijke cuspidaten in de onderkaak leken minder aangetast. In het onderfront waren fistels aanwezig en had de gingiva een hyperemisch, gezwollen aspect. De tijdelijke gebitselementen in de bovenkaak waren niet afwijkend in kleur en vorm (afb. 2).

Röntgenologisch onderzoek, dat de patiënt inmiddels goed toeliet, werd verricht. Op de panoramische röntgenopname leken de blijvende gebitselementen in de bovenkaak en die in de onderkaak links in aanleg aanwezig te zijn, terwijl gebitselement 46 en de kiemen van de gebitselementen 44 en 45 waren achtergebleven in ontwikkeling ten opzichte van de homologe kiemen aan de linkerzijde en ze leken dysplastisch (afb. 3). Verder hadden gebitselementen 73-83 grote pulpaholten en toonden zij een onduidelijke overgang tussen glazuur en dentine. Gebitselement 46 had een aspect van hypoplastisch glazuur en een grote kroonpulpaholte. De gebitselementen in het onderfront toonden het beeld van 'ghost teeth'.

Op basis van het klinisch beeld en de panoramische röntgenopname werd de diagnose regionale odontodysplasie gesteld.



Afb. 1. Klinisch vertonen de gebitselementen van het onderfront een gele tot geelbruine verkleuring en attritie; labiaal van de gebitselementen 71, 81 en 83 bevinden zich fistels.



Afb. 2. Klinisch laten de tijdelijke gebitselementen in de bovenkaak een normaal aspect zien, terwijl de gebitselementen 73-83 kenmerken van (regionale) odontodysplasie vertonen.

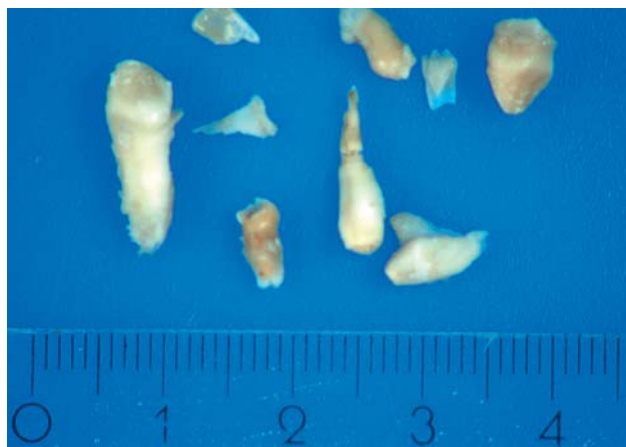
### Behandeling na tweede bezoek

In verband met de zeer jonge leeftijd van het kind en zijn angst voor de tandheelkundige behandeling werden onder poliklinische narcose de gebitselementen in het onderfront verwijderd. Zij werden opgestuurd voor histopathologisch onderzoek (afb. 4). Na ontkalken van de gebitselementen werden zij gelamelleerd en ingesloten voor microscopisch onderzoek (afb. 5). Daaruit bleek dat zowel het dentine als het glazuur gedeformeerd waren. Het dentine was hypoplastisch met een verbreding van de laag predentine. Daarnaast werden grote gebieden van interglobulair dentine gezien en een onregelmatig patroon van de tubuli. Ook het glazuur was hypoplastisch en toonde een verstoorde mineralisatie. Focaal werden in de pulpakamer verkalkingen, pulpasten, aangetroffen. Het histologisch beeld past bij een regionale odontodysplasie.

Drie maanden na de tandheelkundige behandeling onder algehele anesthesie werd de patiënt voor controle gezien. Het postoperatieve verloop was ongecompliceerd verlopen; de extractiewonden waren snel geheeld. De patiënt at en kauwde goed en had geen problemen. De huistandarts werd na de kaakchirurgische ingreep schriftelijk geïnformeerd en afgesproken werd dat de mondzorg weer in de huispraktijk zou worden gegeven. Daarnaast zou de patiënt eens per jaar op de afdeling Kaakchirurgie en Bijzondere Tandheelkunde voor controle worden gezien, waarbij mogelijk in een latere leeftijdsfase bij het doorbreken of niet-doorbreken van de



Afb. 3. Panoramische röntgenopname op 4-jarige leeftijd met kenmerken van regionale odontodysplasie van de gebitselementen 73-83 (en hun opvolgers) en de kiemen van de gebitselementen 44, 45 en 46.



Afb. 4. Macroscopische foto van de verwijderde gebitselementen.

blijvende gebitselementen in de regio 46-33 meer overleg nodig kan zijn.

### Beschouwing

Regionale odontodysplasie is een zeldzame, niet-erfelijke ontwikkelingsstoornis van gebitselementen, waarbij alle harde tandweefsels zijn betrokken, zowel van ectodermale (glazuur) als van mesodermale (dentine en cement) origine. Primair en het meest ernstig aangedaan is het glazuur. De afwijking komt vaker voor bij vrouwen dan bij mannen. De prevalentie van deze aandoening is niet bekend.

Regionale odontodysplasie kan zowel voorkomen in de tijdelijke als in de blijvende dentitie en beperkt zich gewoonlijk tot 1 kaak en meestal tot 1 kwadrant. Regionale odontodysplasie wordt vaker in de bovenkaak dan in de onderkaak gezien. De predilectieplaats is het bovenfront. Soms overschrijdt de regionale odontodysplasie de mediaanlijn, vooral in de onderkaak wordt dit af en toe gezien (Hamdan et al, 2004). Hoewel meer dan 130 casus van patiënten met regionale odontodysplasie zijn beschreven in de literatuur (Crawford en Aldred, 1989; Tervonen et al, 2004), zijn geen casus beschreven van peuters/kleuters met regionale odontodysplasie. Wel wordt bij oudere kinderen beschreven dat hun tijdelijke dentitie vroegtijdig verloren was gegaan als gevolg van 'cariësactiviteit'. Vermeld is dat wanneer tijdelijke gebitselementen odontodysplastisch zijn, de helft van hun opvolgers eveneens is aangedaan (Tidwell en Cunningham, 1979).

De oorzaak van regionale odontodysplasie is niet bekend. Als mogelijke oorzaken worden genoemd: lokale factoren als een lokaal trauma of lokale ischemie (resectie van een alveolaire arterie bij konijnen leidde tot gebitselementen met een soortgelijke aandoening), radiotherapie, teratogene medicijnen, activatie van een latent virale infectie van de tandkiem tijdens de ontwikkeling (wat niet kon worden bevestigd) en lokale vasculaire defecten en hemangiomen (Nagai et al, 1963; Rushton, 1965; Lumin en Devore, 1976; Tidwell en Cunningham, 1979). Vaak wordt de aanwezigheid van hemangiomen expliciet vermeld, maar ook werd

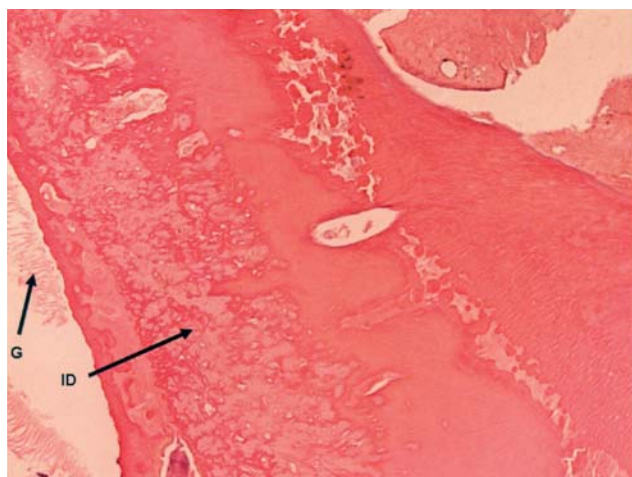
nadrukkelijk de afwezigheid ervan geconstateerd. Ook hypoxie van de moeder is als oorzaak genoemd (Williams en High, 1988). Voor een hydrocefalapatiënt zijn tijdelijke en blijvende gebitselementen met deze aandoening beschreven (Dahllöf et al, 1987).

Het klinische beeld van regionale odontodysplasie wordt gekenmerkt door een vertraagde doorbraak van gebitselementen, waarschijnlijk als gevolg van een minder goed ontwikkeld glazuurorgaan. Soms breken de aangedane gebitselementen niet door (40%) of kunnen deze zelfs resorberen (Hall, 1994). Een eerste symptoom van regionale odontodysplasie bij een kind kan, net als in de beschreven casus, een acuut dentaal abces zijn dat is gerelateerd aan een nog niet-doorgebroken of in doorbraak zijnd odontodysplastisch gebitselement. Is een aangedaan gebitselement doorgebroken, dan valt op dat het glazuur hypoplastisch en gehypomineraliseerd is. Deze onderontwikkeling van het glazuur manifesteert zich als een geel tot geelbruine kleur van het glazuur (door het doorschemeren van het onderliggende dentine). Als direct gevolg van de dysplastische vorming van de glazuurkap, kan een directe verbinding van het glazuuropervlak met de pulpaholte bestaan, wat kan leiden tot acute abcesvorming. De gingiva rond de pas doorgebroken odontodysplastische gebitselementen heeft een hyperemisch, gezwollen aspect vanwege de aanwezigheid van granulatieweefsel dat het gereduceerde glazuurepitheel vervangt. Op de röntgenopname geven de korte wortel(s), die zich uiteindelijk soms toch geheel ontwikkelen (Spini et al, 2007), het wijde en open foramen apicale, de grote pulpakamer, de dunne en slecht gemineraliseerde glazuurkap en de vage overgang van glazuur naar dentine een typisch 'zwak radiolucent beeld', waaraan in de literatuur de naam 'ghost teeth' is gegeven (Pindborg, 1970).

Histopathologisch kenmerkt een regionale dysplasie zich door gebitselementen met een verwijde pulpakamer, hypoplastisch dentine met een verbrede laag predentine, gebieden van (inter)globulair dentine en een onregelmatig patroon van tubuli. Ook het glazuur is hypoplastisch vanwege de verminderde mineralisatie. Het gereduceerde glazuurepitheel kan verkalkingen bevatten. In de pulpakamer kunnen pulpasten worden gezien (Van der Wal et al, 1993).

### Discussie

Bij de behandeling van patiënten met regionale odontodysplasie moet men rekening houden met een vertraagde doorbraak van tijdelijke en blijvende gebitselementen. Soms breken de aangedane gebitselementen helemaal niet door en kan zelfs resorptie van het tandmateriaal optreden (Spini et al, 2007; Gündüz et al, 2008). Wanneer de minder goed gevormde, geelbruin gekleurde gebitselementen doorbreken, kan dit gepaard gaan met pijnklachten en gingivazwellingen. Bij elke patiënt met regionale odontodysplasie moet individueel worden bekeken welke behandelprocedure het beste kan worden gevolgd. De leeftijd van de patiënt, het aantal aangedane gebitselementen en de ernst van de aantasting zijn, naast de attitude en de wens van kind en ouders, factoren die medebepalend zijn voor het te volgen behandeltraject.



Afb. 5. Histologisch beeld van een geëxtraheerd tijdelijk gebitselement met karakteristieke kenmerken van odontodysplasie. Het dentine is minder goed gevormd: er is een groot gebied met interglobulair dentine (ID); gedemineraliseerde glazuurkap (G).

Zolang mogelijk behoud van de dysplastische gebitselementen met behulp van composietmateriaal lijkt aangewezen met als alternatief kronen (Lowe en Duperon, 1985; Cho, 2006). Zijn de gebitselementen niet te behouden, dan is extractie de beste therapie. Vroegtijdig verlies van gebitselementen leidt tot substantiële reductie in de hoogte van het alveolaire bot. Een (tijdelijke) partiële prothetische voorziening moet de esthetische functie vervullen en de kauw- en spraakfunctie opvangen. Mogelijk kunnen implantaten op latere leeftijd een belangrijke rol gaan spelen.

De tandheelkundige zorg en behandeling van kinderen met regionale odontodysplasie vraagt om een multidisciplinaire aanpak waarbij tandarts, prothetist en orthodontist in teamverband moeten samenwerken.

### Leermoment

Submucoze abcessen bij heel jonge kinderen, uitgaande van tijdelijke gebitselementen met een afwijkende kleur en structuur, kunnen symptomatisch zijn voor een regionale odontodysplasie. Een röntgenopname van betrokken tijdelijk(e) gebitselement(en) kan de diagnose bevestigen of verwerpen.

### Literatuur

- \* Cho SY. Conservative management of regional odontodysplasia: a case report. *J Can Dent Assoc* 2006; 72: 735-738.
- \* Crawford PJM, Aldred MJ. Regional odontodysplasia: a bibliography. *J Oral Pathol Med* 1989; 18: 251-263.
- \* Dahllöf G, Lindskog S, Theorell K, Ussisoo R. Concomitant regional odontodysplasia and hydrocephalus. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987; 63: 354-357.
- \* Gündüz K, Zengin Z, Çelenk P, Özden B, Kurt M, Gunhan C. Regional odontodysplasia of the deciduous and permanent teeth associated with eruption disorders: A case report. *Med Oral Patol Oral Cir Buccal* 2008; 13: E563-566.
- \* Hall RK. *Pediatric Orofacial Medicine and Pathology*. London, Chapman & Hall Medical, 1994.
- \* Hamdan MA, Sawair FA, Rajab LD, Hamdan AM, Al-Omari IK. Regional odontodysplasia: a review of the literature and report of a case. *Int J Paediatr Dent* 2004; 14: 363-370.
- \* Lowe O, Duperon DF. Generalized odontodysplasia. *J Pedod* 1985; 9: 232-243.
- \* Lumin M, Devore D. The etiology of odontodysplasia. *J Dent Res* 1976; 55 (II): 189, abstr. 192.
- \* Nagai I, Yoshida W, Kumegawa M, Arita J, Ikeda J. Early influence of polyoma virus on transplanted tooth germs. *J Dent Res* 1963; 42: 1131-1139.
- \* Pindborg JJ. *Pathology of the dental hard tissues*. Copenhagen, Munksgaard, 1970.
- \* Rushton MA. Odontodysplasia: 'Ghost teeth'. *Br Dent J* 1965; 119: 109-113.
- \* Spini TH, Sargenti-Neto S, Cardoso SV, et al. Progressive dental development in regional odontodysplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 104: e40-45.
- \* Tervonen SA, Stratmann U, Mokryš K, Reichart PA. Regional odontodysplasia: a review of the literature and report of four cases. *Clin Oral Invest* 2004; 8: 45-51.

### Casuïstiek

- \* Tidwell E, Cunningham CJ. Dental dysplasia: endodontic treatment, with case report. *J Endod*; 5: 372-376.
- \* Wal JE van der, Rittersma J, Baart JA, Waal I van der. Regional odontodysplasia: report of three cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1993; 22: 356-358.
- \* Williams SA, High AS. Odontodysplasia associated with orbital coloboma. *Br Dent J* 1988; 164: 390-394.

### Summary

#### An obscure anomaly: regional odontodysplasia

In a 3-year-old child, acute dental abscesses in combination with clinical and radiographic impressions of a number of deciduous teeth indicated regional odontodysplasia as probable diagnosis. Histological examination of the removed deciduous teeth confirmed the diagnosis. Early determination of this regional developmental anomaly in the odontogenesis is of great importance for optimal guidance of the dental care of a patient with regional odontodysplasia.

### Bron

M. Hoff<sup>1</sup>, I.S. van der Haring<sup>1</sup>, J.E. van der Wal<sup>2</sup>, A. Vissink<sup>1</sup>

Uit <sup>1</sup>de afdeling Mondziekten, Kaakchirurgie en Bijzondere tandheelkunde en <sup>2</sup>de afdeling Pathologie van het Universitair Medisch Centrum Groningen

Datum van acceptatie: 23 februari 2010

Adres: mw. M. Hoff, UMC Groningen, postbus 30.001, 9700 RB Groningen  
m.hoff@kchir.umcg.nl