Διπλή κύστη ανατολής σε νεογέννητο αγόρι Παρουσίαση περίπτωσης και ανασκόπηση της βιβλιογραφίας

Μαρίσσα ΖΑΡΑΚΑ[1], Κυριακή ΤΣΙΝΙΔΟΥ[2], Κορίνα ΤΡΙΑΝΤΑΦΥΛΛΟΥ[1], Ελευθερία ΜΕΓΑΛΟΓΙΑΝΝΗ[3], Κωνσταντίνος Ι. ΤΟΣΙΟΣ[4]

Ιδιωτικό ιατρείο και Εργαστήριο Στοματολογίας. Οδοντιατρική Σχολή ΕΚΠΑ

Double eruption cyst in a newborn boy Case report and review of the literature

Marissa ZARAKAS, Kyriaki TSINIDOU, Corina TRIANTAFYLLOU, Eleftheria MEGALOGIANNI, Konstantinos I. TOSIOS

Private practice and Department of Oral Pathology. Dental School, University of Athens, Greece

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
Case report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Η κύστη ανατολής είναι μια οδοντοφόρος κύστη των μαλακών ιστών των γνάθων που σχηματίζεται γύρω από τη μύλη ενός ανατέλλοντος νεογιλού ή μόνιμου δοντιού, λόγω του διαχωρισμού του οδοντοθυλακίου από τη μύλη. Κατά κανόνα εμφανίζεται ως μονήρης διόγκωση στο βλεννογόνο της φατνιακής απόφυσης, ενώ πολλαπλές κύστεις ανατολής που αναπτύσσονται ταυτόχρονα ή με μικρή χρονική διαφορά μεταξύ τους, αποτελούν ασυνήθιστο φαινόμενο. Περιγράφεται περίπτωση αγοριού 2 μηνών με δύο παρακείμενες κύστεις ανατολής στην περιοχή των νεογιλών κεντρικών τομέων της κάτω γνάθου, με κλινική εικόνα σαν συγγενής δίλοβος όγκος με λεία επιφάνεια και κυανό χρώμα. Η βλάβη είχε διαγνωσθεί ως «αιμαγγείωμα», αλλά παρουσίασε προοδευτικά μεγέθυνση και μεταβολή στο χρώμα. Το ατομικό και οικογενειακό ιατρικό ιστορικό ήταν ελεύθερα. Στην ακτινογραφική εξέταση διαπιστώθηκε η επιφανειακή θέση των νεογιλών κεντρικών τομέων μέσα στους μαλακούς ιστούς και δεν αποκαλύφθηκε παθολογική απορρόφηση του οστού. Με την κλινική διάγνωση διπλής κύστης ανατολής αποφασίστηκε η μηνιαία παρακολούθηση της βλάβης, η οποία ένα μήνα μετά την κλινική εξέταση εξαφανίσθηκε αυτόματα και χωρίς αντιληπτή αιμορραγία. Ένα χρόνο μετά ο νεογιλοί κεντρικοί τομείς είχαν ανατείλει κανονικά και δεν υπήρχε υπολειπόμενη βλάβη στην περιοχή.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: παθήσεις του στόματος, νεογνό, κύστη κάτω γνάθου, κύστη ανατολής.

[1] *Οδοντίατρος*
[2] *Παιδοδοντίατρος*
[3] *Παιδίατρος*
[4] *Επίκουρος Καθηγητής Στοματολογίας ΕΚΠΑ*

Παρελήφθη: 25/9/2011 - Έγινε δεκτή: 22/11/2011

SUMMARY: Eruption cyst is a dentigerous cyst of the soft tissue of the jaws that forms around the crown of an erupting primary or permanent tooth, due to separation of the dental follicle from the crown. Eruption cysts usually present as solitary swellings on the alveolar ridge mucosa, whereas multiple eruption cysts presenting simultaneously or in short intervals are uncommon. The case of a 2 month-old Caucasian boy with two adjacent eruption cysts, manifesting as a congenital bilobular tumor of smooth surface and blue color, on the mandibular central incisors area is presented. The lesion was diagnosed as a "hemangioma", but it progressively grew in size and changed in color. The patient's and family medical history were noncontributory. Radiographic examination revealed the superficial location of the primary mandibular central incisors within the soft tissues, and showed no abnormal bone resorption. With the diagnosis of double eruption cyst, a monthly follow-up of the patient was suggested and a month after the clinical examination the cyst disappeared spontaneously without noticeable hemorrhage. A year later the primary mandibular central incisors had erupted normally and there was no residual lesion.

KEY WORDS: mouth diseases, neonate, mandibular cyst, eruption cyst.

Paper received: 25/9/2011 - Accepted: 22/11/2011

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η κύστη ανατολής είναι μια οδοντοφόρος κύστη των μαλακών ιστών των γνάθων που σχηματίζεται γύρω από τη μύλη ενός ανατέλλοντος νεογιλού ή μόνιμου δοντιού, λόγω του διαχωρισμού του οδοντοθυλακίου από τη μύλη (Neville και συν. 2009). Ο επιπολασμός της κυμαίνεται από 0,2%, σε μελέτη 2910 βρεφών που εξετάστηκαν κατά τη γέννηση τους (Clark, 1962), 0,45%, σε μελέτη 6000 παιδιατρικών ασθενών σε ιδιωτικό οδοντιατρείο (Aquilo και συν. 1998), 22%, σε μελέτη 69 ασθενών με κυστικές βλάβες των γνάθων (Bodner, 2002), και 11% και 30% σε μελέτη 224 βρεφών για την περιοχή των τομέων και των κυνοδόντων/γομφίων, αντίστοιχα (Seward, 1973). Ο ακριβής επιπολασμός της κύστης ανατολής, ωστόσο, είναι δύσκολο να εκτιμηθεί, καθώς οι περισσότερες βλάβες περνούν απαρατήρητες, είτε γιατί υποστρέφουν αυτόματα (Boj και Garcia-Godoy, 2000), είτε επειδή θεωρούνται «συνήθεις» και επομένως δεν περιγράφονται στη βιβλιογραφία.

Η κύστη ανατολής μπορεί να παρατηρηθεί τόσο τη νεογιλή όσο και τη μόνιμη οδοντοφυΐα, με προτίμηση για την τελευταία (Seward, 1973, Aquilo και συν. 1998, Anderson, 1990, Bodner και συν. 2004). Έχει διαγνωσθεί σε ηλικίες από 1 μηνός μέχρι 21 ετών, ωστόσο οι περισσότερες κύστεις εμφανίζονται πριν τους 24 μήνες και μεταξύ 6 και 11 ετών, ηλικίες που συμβαδίζουν με την περίοδο ανατολής των νεογιλών και των μονίμων δοντιών, αντίστοιχα (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo και συν. 1998, Bodner, 2002, Bodner και συν. 2004). Αν και σε μία μελέτη έχει αναφερθεί προτίμηση για τα αγόρια, με αναλογία αγοριών-κοριτσιών 2:1 (Bodner και συν. 2004), το εύρημα δεν έχει επιβεβαιωθεί σε άλλες μελέτες (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo και συν. 1998, Bodner, 2002).

Κλινικά, εμφανίζεται συνήθως ως μονήρης, μαλακή και ευπίεστη διόγκωση στο βλεννογόνο της φατνιακής απόφυσης, σφαιρικού σχήματος, με χρώμα που κυμαίνεται από διαυγές ως ερυθρό ή κυανό (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo και συν. 1998, Bodner και συν. 2004, Boj και συν. 2006). Μπορεί να αναπτυχθεί και στις δύο γνάθους, με προτίμηση για την περιοχή των νεογιλών κεντρικών τομέων της κάτω γνάθου και των πρώτων μονίμων γομφίων (Anderson, 1990, Aquilo και συν. 1998, Bodner και συν. 2004). Έχει επίσης αναφερθεί σε σχέση με προνεογιλά ή πρώιμα δόντια (Bodner και συν. 2004, Ricci και συν. 2008) που υπάρχουν κατά τη γέννηση (natal) ή ανατέλλουν στον πρώτο μήνα της ζωής του βρέφους (neonatal) (Cunha και συν. 2001). Το μέγεθος συνήθως δεν ξεπερνά τα 0,6 cm και παρουσιάζει διακυμάνσεις, ανάλογα με το αν αφορά νεογιλό ή μόνιμο δόντι (Seward, 1973, Boj και συν. 2006). Οι περισσότερες κύστεις ανατολής είναι ασυμπτωματικές, αλλά μπορεί να συνοδεύονται

INTRODUCTION

Eruption cyst is a dentigerous cyst of the soft tissue of the jaws that forms around the crown of an erupting primary or permanent tooth, due to separation of the dental follicle from the crown (Neville et al. 2009). Its prevalence varies from 0.2% among 2,910 infants examined at delivery (Clark, 1962); 0.45% among 6,000 pediatric patients attending a private dental clinic (Aquilo et al. 1998); 22% among 69 pediatric patients with cystic lesions of the jaws (Bodner, 2002); and 11% to 30% among 224 newborns for the incisors and canine/molar areas, respectively (Seward, 1973). The exact prevalence of eruption cyst, however, is difficult to be estimated as many lesions go unnoticed, because they rupture spontaneously (Boj and Garcia-Godoy, 2000), or are not reported in the literature, because they are considered common lesions.

Both primary and permanent dentitions may be involved, with a preference for the latter (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo et al. 1998, Bodner et al. 2004). The age at diagnosis ranges from 1 month to 21 years, with most cysts presenting before 24 months or between 6 and 11 years, concurrently with the eruption ages of the primary and permanent dentition, respectively (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo et al. 1998, Bodner, 2002, Bodner et al. 2004). Although in a study a male predisposition was revealed, with a male to female ratio of 2:1 (Bodner et al. 2004), this finding has not been confirmed in other studies (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo et al. 1998, Bodner, 2002).

Clinically, it usually presents as a solitary, soft and compressible on palpation, dome-shaped swelling on the alveolar ridge mucosa, with a color ranging from translucent to red or blue (Seward, 1973, Anderson, 1990, Aquilo et al. 1998, Bodner et al. 2004, Boj et al. 2006). It may appear in both jaws, with a predilection for the deciduous mandibular incisors and permanent first molars regions (Anderson, 1990, Aquilo et al. 1998, Bodner et al. 2004). It may occasionally involve natal or neonatal teeth (Bodner et al. 2004, Ricci et al. 2008), i.e. teeth that are present at birth or erupt during the first month of life, respectively (Cunha et al. 2001). It usually measures less than 0.6 cm in diameter, its size depending on the association of the cyst with a deciduous or permanent tooth (Seward, 1973, Boj et al. 2006). Most eruption cysts are asymptomatic, but pain on palpation due to trauma or infection may be present (Anderson, 1990).

Radiographically, no bone abnormality is seen as the cyst is in the soft tissues of the alveolar ridge, but at an x-ray is important for the documentation of the location of the involved teeth and its differential diagnosis from other lesions (Bodner, 2002). Biopsy is usually

από πόνο λόγω τραύματος ή επιμόλυνσης (Anderson, 1990).
Ακτινογραφικά, δεν παρατηρείται αλλοίωση του οστού της γνάθου, αφού η κύστη βρίσκεται μέσα στους μαλακούς ιστούς, ωστόσο η ακτινογραφία είναι σημαντική για την εκτίμηση της θέσης των εμπλεκόμενων δοντιών και τη διαφορική διάγνωση από άλλες βλάβες (Bodner, 2002). Βιοψία ενδείκνυται όταν η κλινική εικόνα δεν είναι διαγνωστική και η ιστολογική εξέταση δείχνει πως το τοίχωμα της κύστης αποτελείται από ινώδη συνδετικό ιστό και μη κερατινοποιημένο πολύστιβο πλακώδες επιθήλιο (Bodner και συν. 2004).
Περιγράφεται ασυνήθιστη περίπτωση αγοριού 2 μηνών με δύο παρακείμενες κύστεις ανατολής που έδιναν την εικόνα συγγενούς δίλοβου όγκου στην περιοχή των νεογιλών κεντρικών τομέων της κάτω γνάθου, και συζητείται η διαφορική διάγνωση.

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Αγόρι ηλικίας 2 μηνών παραπέμφθηκε για διάγνωση και αντιμετώπιση συγγενούς διόγκωσης στο στόμα. Η βλάβη είχε διαγνωσθεί κατά τη γέννηση ως «αιμαγγείωμα που χρειάζεται περιοδική παρακολούθηση», αλλά οι γονείς παρατήρησαν ότι προοδευτικά η βλάβη «διογκωνόταν περισσότερο και το χρώμα γινόταν λιγότερο σκούρο». Το ατομικό και οικογενειακό ιατρικό ιστορικό ήταν ελεύθερα.
Η κλινική εξέταση αποκάλυψε δίλοβο όγκο με λεία επιφάνεια και κυανό χρώμα στην περιοχή των νεογιλών κεντρικών τομέων της κάτω γνάθου, διαστάσεων 1,5x1x1 cm, χωρίς διόγκωση του υποκείμενου οστού (Εικ. 1). Η βλάβη ήταν ευπίεστη, κλυδάζουσα και κατά την πίεση δεν εμφάνισε αποχρωματισμό. Η υπόλοιπη κλινική εξέταση του στόματος και της περιοχής κεφαλής-τραχήλου δεν αποκάλυψε παθολογικά ευρήματα.
Στην κλινική διαφορική διάγνωση συμπεριλήφθησαν, λόγω του κυανού χρώματος, η κύστη ανατολής, το αιμαγγείωμα, ο μελανωτικός νευροεξωδερμικός όγκος των νεογνών, η συγγενής επουλίδα και το νεογνικό λεμφαγγείωμα της φατνιακής απόφυσης.
Στην οπισθοφατνιακή ακτινογραφία διαπιστώθηκε η επιφανειακή θέση των νεογιλών κεντρικών τομέων μέσα στους μαλακούς ιστούς και η έλλειψη παθολογικής απορρόφησης του οστού (Εικ. 2).
Η κλινική διάγνωση ήταν κύστη ανατολής και καθώς το βρέφος δεν εμφάνιζε δυσφορία ή δυσκολίες κατά τη σίτιση, αποφασίστηκε η παρακολούθηση της βλάβης κάθε μήνα. Παράλληλα, συστήθηκε στους γονείς να μην «ενοχλούν» τις βλάβες.
Οι γονείς του βρέφους ανέφεραν ότι ένα μήνα μετά την εξέταση η διόγκωση εξαφανίσθηκε αυτόματα και χωρίς αντιληπτή αιμορραγία, και πως «παρόμοιες βλάβες» προηγήθηκαν της ανατολής των περισσότερων νεογιλών δοντιών που εμφανίστηκαν στη συνέχεια. Ένα

indicated in cases where the clinical presentation is not diagnostic, and histologic examination shows a fibrous connective tissue wall lined by non-keratinized stratified squamous epithelium (Bodner et al. 2004).
An unusual case of a 2 month-old Caucasian boy with two adjacent eruption cysts, manifesting as a congenital bilobular enlargement on the mandibular central incisors area, is presented and its differential diagnosis is discussed.

CASE PRESENTATION

A 2 month-old Caucasian boy was referred for diagnosis and management of a congenital "bulge" in his mouth. The lesion had been diagnosed at the birth as "a hemangioma, requiring regular follow-up", but the parents were worried when they noticed that it progressively became more "swollen and elevated, and less dark". The patient's and family medical history were noncontributory.
Clinical examination revealed a bilobular tumor with smooth surface and dark blue color on the primary mandibular central incisors area, measuring 1.5x1x1cm, without expansion of the underlying bone (Fig. 1). The lesion was compressible and fluctuant, but did not blanch on palpation. The rest of oral and head and neck examination was within normal limits.
Due to the color of the lesion, the differential diagno-

Εικ. 1: Δίλοβος όγκος με λεία επιφάνεια και κυανό χρώμα στην περιοχή των νεογιλών κεντρικών τομέων της κάτω γνάθου.
Fig. 1: Bilobular tumor with smooth surface and dark blue color on the primary mandibular central incisors area.

Εικ. 2: Στην οπισθοφατνιακή ακτινογραφία διαπιστώθηκε η επιφανειακή θέση των νεογιλών κεντρικών τομέων μέσα στους μαλακούς ιστούς και η έλλειψη παθολογικής απορρόφησης του οστού.
Fig. 2: Intraoral radiograph shows that the primary mandibular central incisors are superficially located and within the soft tissues, and there is no abnormal bone resorption.

χρόνο μετά ο νεογιλοί κεντρικοί τομείς είχαν ανατείλει κανονικά και δεν υπήρχε υπολειπόμενη βλάβη στην περιοχή (Εικ. 3).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Στην παρούσα περίπτωση η εμφάνιση δύο κύστεων ανατολής σε παρακείμενα δόντια δημιούργησε την κλινική εικόνα συγγενούς δίλοβου όγκου των ούλων.
Πολλαπλές κύστεις ανατολής που εμφανίζονται ταυτόχρονα ή με μικρή χρονική διαφορά μεταξύ τους, αποτελούν ασυνήθιστο φαινόμενο (Peters και Schock, 1971, Nomura και συν. 1996, Aquilo και συν. 1998, Boj και Garcia-Godoy, 2000, Ricci και συν. 2008). Στον Πίνακα συνοψίζονται τα κύρια κλινικά χαρακτηριστικά 12 δημοσιευμένων περιπτώσεων, συμπεριλαμβανομένης και της παρούσας. Η 1η περίπτωση των Peters και Schock (1971) δεν συμπεριλήφθηκε, επειδή πρόκειται πιθανώς για λεμφαγγείωμα της φατνιακής απόφυσης (Wilson και συν. 1986). Η αναλογία ανδρών:γυναικών ήταν 2:1, και στα 5 από τα 12 περιστατικά όπου αναφερόταν η φυλετική προέλευση των ασθενών, δεν διαπιστώθηκε συγκεκριμένη προτίμηση. Υπήρχε ομαλή κατανομή μεταξύ νεογιλής και μόνιμης οδοντοφυΐας. Πέντε κύστεις εμφανίσθηκαν στην περιοχή των τομέων, 4 στην περιοχή των γομφίων, και 3 και στις δύο περιοχές. Στην άνω γνάθο εντοπίζονταν 5 κύστεις, στην κάτω γνάθο 3, ενώ σε 4 περιστατικά κύστεις εμφανίσθηκαν και στις γνάθους. Σε 7 περιπτώσεις οι βλάβες ήταν αμφοτερόπλευρες και συμμετρικές και σε 2 η κλινική εικόνα ήταν ίδια με αυτή της παρούσας περίπτωσης (Peters και Schock, 1971, Ricci και συν. 2008). Γενικά, τα κλινικά χαρακτηριστικά των περιπτώσεων με πολλαπλές κύστεις ανατολής δεν διαφέρουν σημαντικά από αυτά με μονήρεις βλάβες.
Περιστατικά με κύστεις ανατολής σε προνεογιλά δόντια έχουν αναφερθεί στη βιβλιογραφία (Bodner και συν. 2004, Ricci και συν. 2008). Στην παρούσα περίπτωση, οι νεογιλοί κεντρικοί τομείς ανέτειλαν στην ηλικία περίπου των 3 μηνών, επομένως δεν μπορούν να θεωρηθούν προνεογιλά δόντια, καθώς ως προνεογιλά θεωρούνται τα δόντια που υπάρχουν κατά τη γέννηση ή ανατέλλουν στον πρώτο μήνα της ζωής του βρέφους (Cunha και συν. 2001). Τέλος, κύστεις ανατολής έχουν περιγραφεί σε ασθενείς με ηπατοβλάστωμα (Karp και Milner, 2009), νόσο Kinky-hair (Nomura και συν. 1996) και σε σχέση με τη λήψη κυκλοσπορίνης (Clark, 1962, Hayes 2000, Ricci και συν. 2008).
Στην κλινική διαφορική διάγνωση διογκώσεων στη φατνιακή ακρολοφία των νεογνών περιλαμβάνονται η ουλική κύστη των νεογνών, η συγγενής επουλίδα, ο μελανωτικός νευροεξωδερμικός όγκος, το αιμαγγείωμα, το νεογνικό λεμφαγγείωμα της φατνιακής απόφυσης και το αμάρτωμα των ούλων.
Οι ουλικές κύστεις των νεογνών αποτελούν τους

Εικ. 3: A year later the deciduous central incisors have erupted normally and there is no residual lesion.
Fig. 3: Ένα χρόνο μετά ο νεογιλοί κεντρικοί τομείς έχουν ανατείλει κανονικά και δεν υπάρχει υπολειπόμενη βλάβη στην περιοχή.

sis included eruption cyst, hemangioma, melanotic neuroectodermal tumor of infancy, congenital epulis and neonatal alveolar lymphagioma.
An intraoral radiograph showed that the primary mandibular central incisors were superficially located and within the soft tissues, and there was no abnormal bone resorption (Fig. 2).
The clinical diagnosis was eruption cyst and as the infant showed no obvious discomfort or difficulties in feeding, a monthly follow-up was suggested. The parents were advised to avoid irritating the lesions.
The parents reported that a month later the swelling spontaneously disappeared without noticeable hemorrhage and that "similar lesions" preceded the eruption of most deciduous teeth which erupted later on. A year later the deciduous central incisors had erupted normally and there was no residual lesion (Fig. 3).

DISCUSSION

In the case described herein, the presence of 2 eruption cysts in adjacent teeth were suggestive of a congenital bilobular gingival tumor.
Multiple eruption cysts, presenting simultaneously or in short intervals of time, are uncommon (Peters and Schock, 1971, Nomura et al. 1996, Aquilo et al. 1998, Boj and Garcia-Godoy, 2000, Ricci et al. 2008). The main clinical features of 12 cases of multiple eruption cysts, presenting simultaneously or in short intervals, including the present one, are summarized in Table. Case 1 of Peters and Schock (1971) was not included, as it most likely represented lymphangiomas of the alveolar ridge (Wilson et al. 1986). The male to female ratio was 2:1, and no racial predilection was evident in 5 of 12 cases with specified race. There was an even distribution between the deciduous and permanent dentition. Five cases were located in the incisors area, 4 in the molar area and 3 in both areas. The maxilla was involved in 5 cases, the mandible in 3, while in the other

Πίνακας
Κύρια κλινικά χαρακτηριστικά 12 περιπτώσεων πολλαπλών κύστεων ανατολής

Συγγραφείς	Φύλο*	Φυλή**	Ηλικία (χρόνια.μήνες)	Εντόπιση***	Γνάθος	
Peters και Schock, 1971	Θ	Μ	Νεογέννητο	ΚΤ	κάτω	περίπτωση 2, αμφοτερόπλευρη και συμμετρική
Nomura και συν. 1996	Α	Α	4	ΚΤ-Γ	άνω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική, νόσος Kinky-hair
Aguilo και συν. 1998	Α	δ/δ	6.2	Γ	άνω/κάτω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική
	Θ	δ/δ	6.11	Γ	άνω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική
	Α	δ/δ	6.11	Γ	άνω/κάτω	
	Θ	δ/δ	6.9	ΚΤ-Γ	άνω	
	Θ	δ/δ	6.11	ΠΤ	άνω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική
	Α	δ/δ	8.8	ΚΤ-ΠΤ	άνω	
Boj και Garcia-Godoy, 2000	Α	δ/δ	1.3	ΚΤ-Γ/Γ	άνω/κάτω	
Ricci και συν. 2008	Α	Μ	Νεογέννητο	ΚΤ	κάτω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική
Karp και Milner, 2009	Α	Κ	1	Γ	άνω/κάτω	ετερόπλευρη
Παρούσα περίπτωση	Α	Κ	2 μηνών	ΚΤ	κάτω	αμφοτερόπλευρη και συμμετρική

*Θ=θήλυ, Α=άρρεν, **Μ=μαύρης φυλής, Α=ασιατικής φυλής, Κ=καυκάσιας φυλής, δ/δ= δεν διευκρινίζεται
***ΚΤ=κεντρικός τομέας, Γ=γομφίος, ΠΤ=πλάγιος τομέας

Table
Main clinical features of 12 cases of multiple eruptions cysts

Συγγραφείς	Sex*	Race**	Age (years.months)	Site***	Jaw****	
Peters and Schock, 1971	F	B	Newborn	CI	L	Case 2, Bilateral and symmetrical
Nomura et al. 1996	M	A	4	CI-M	U	Bilateral and symmetrical, Kinky-hair disease
Aguilo et al. 1998	M	n/s	6.2	M	U/L	Bilateral and symmetrical
	F	n/s	6.11	M	U	Bilateral and symmetrical
	M	n/s	6.11	M	U/L	
	F	n/s	6.9	CI-M	U	
	F	n/s	6.11	LI	U	Bilateral and symmetrical
	M	n/s	8.8	CI-LI	U	
Boj and Garcia-Godoy, 2000	M	n/s	1.3	CI-M/M	U/L	
Ricci et al. 2008	M	B	Newborn	CI	L	Bilateral and symmetrical
Karp and Milner, 2009	M	C	1	M	U/L	Homolateral
Present case	M	C	2 months	CI	L	Bilateral and symmetrical

*F=female, M=male, **B=black, A=asian, C=Caucasian, n/s=not specified, ***CI=central incisor, M=molar, LI=lateral incisor, ****L=lower, U=mandible

συχνότερους ογκόμορφους σχηματισμούς στα νεογέννητα (Neville και συν. 2009). Θεωρείται πως προέρχονται από υπολείμματα της οδοντικής ταινίας και εμφανίζονται με τη μορφή πολλαπλών μικρών ογκιδίων συνήθως στην άνω φατνιακή ακρολοφία. Όταν εδράζονται στην περιοχή της υπερώας περιγράφονται ως

4 cases lesions were present in both jaws. In 7 cases the lesions were bilateral and symmetrical and in 2 the clinical presentation was identical to that of our case (Peters and Schock, 1971, Ricci et al. 2008). In one case multiple eruption cysts were seen in a patient with recessive hereditary Kinky-hair disease (Nomura et al.

μαργαριτάρια του Epstein ή οζίδια του Bohn. Έχουν λευκάζουσα χροιά επειδή περιέχουν κερατίνη, μένουν δε συνήθως αδιάγνωστα γιατί διαρρηγνύονται αυτόματα και εξαφανίζονται χωρίς να γίνουν αντιληπτά από τους γονείς.

Η συγγενής επουλίδα αποτελεί σπάνια βλάβη που εμφανίζεται ως όγκος στην φατνιακή απόφυση των νεογνών (Neville και συν. 2009). Παρουσιάζεται συχνότερα στα θήλεα και στις πρόσθιες περιοχές της φατνιακής απόφυσης της άνω γνάθου. Συνήθως εκδηλώνεται ως μονήρης βλάβη με ρόδινο χρώμα, αλλά έχουν περιγραφεί περιπτώσεις με ερυθρό χρώμα, λόγω φλεγμονής και τοπικής αιμορραγίας (Adeyemi και συν. 2010), καθώς και περιστατικά με πολλαπλές εντοπίσεις (Kumar και συν. 2002, Parmigiani και συν. 2004).

Ο μελανωτικός νευροεξωδερμικός όγκος είναι σπάνια νεοπλασματική βλάβη που παρουσιάζεται κατά τη διάρκεια του πρώτου έτους ζωής των νεογνών ως μια ταχέως εξελισσόμενη διόγκωση των γνάθων με κυανό ή μαύρο χρώμα (Neville και συν. 2009). Αναφέρεται προτίμηση για την άνω γνάθο και τα αγόρια. Εμφανίζει επιθετική συμπεριφορά, διηθεί και καταστρέφει το υποκείμενο οστό και μπορεί να προκαλέσει μετακίνηση των διαπλασσόμενων δοντιών.

Τα αιμαγγειώματα και οι αγγειακές δυσπλασίες είναι οι πιο συχνοί όγκοι της βρεφικής ηλικίας και παρουσιάζονται είτε συγγενώς είτε μερικές εβδομάδες μετά τη γέννηση (Neville και συν. 2009, Bonet-Coloma και συν. 2011). Εμφανίζονται συχνά στην περιοχή κεφαλής και τραχήλου, ως μονήρη ή πολλαπλά μαλακά οζίδια ή όγκοι, με χρώμα κυμαινόμενο από κυανό μέχρι ερυθρό. Επειδή είναι δυνατόν να αναπτυχθούν και ενδοστικά με επέκταση προς τους μαλακούς ιστούς της φατνιακής ακρολοφίας, η ακτινογραφική εξέταση είναι απαραίτητη για την εκτίμησή τους. Διόγκωση των γνάθων, κινητικότητα των δοντιών, πόνος, αιμορραγία, χαρακτηριστικός ήχος (bruit) και αίσθηση παλμού κατά την ψηλάφηση είναι στοιχεία ενδεικτικά ενδοστικού αιμαγγειώματος (Neville και συν. 2009).

Τα λεμφαγγειώματα αποτελούν αναπτυξιακές δυσπλασίες των λεμφαγγείων, συχνότερα αναπτυσσόμενες στη γλώσσα (Neville και συν. 2009). Ωστόσο έχουν περιγραφεί σε περίπου 5% των νεογνών της μαύρης φυλής στο βλεννογόνο της φατνιακής απόφυσης, συνηθέστερα στις οπίσθιες περιοχές της άνω γνάθου και στις γλωσσικές περιοχές της ακρολοφίας την κάτω γνάθου (Wilson και συν. 1986). Εμφανίζονται ως μικρές διογκώσεις φυσιολογικού χρώματος που μπορεί να είναι πολλαπλές και αμφοτερόπλευρες και υποστρέφουν αυτόματα (Wilson και συν. 1986, Neville και συν. 2009). Λόγω της παρόμοιας κλινικής εικόνας με τις κύστεις ανατολής, διάγνωση μπορεί να γίνει μόνον με μικροσκοπική εξέταση μετά από τη χειρουργική αφαίρεση, για αυτό θεωρείται πιθανόν πως ορισμένα

1996). In general, the clinical features of multiple eruption cysts do not differ significantly from those reported for single eruption cysts.

Cases of eruption cysts involving natal or neonatal teeth have been reported in the literature (Bodner et al. 2004, Ricci et al. 2008). In the present case, the deciduous incisors erupted at approximately 3 months of age, thus they cannot be considered neonatal, as neonatal teeth erupt during the first month of life, or natal, as natal teeth are present at birth (Cunha et al. 2001). Finally, eruption cysts have been described in patients with hepatoblastoma (Karp and Milner, 2009) and Kinky-hair disease (Nomura et al. 1996), as well as in association with cyclosporine intake (Clark, 1962, Hayes, 2000, Ricci et al. 2008).

Clinical differential diagnosis of a gingival enlargement in a newborn may include gingival cyst of the newborn, congenital epulis, melanotic neuroectodermal tumor, hemangioma, neonatal alveolar lymphagioma, and gingival hamartoma.

Gingival cysts of the newborn are the most common tumor-like lesions of the newborn (Neville et al. 2009). They are thought to originate from remnants of the dental lamina and present as small, multiple papules usually on the maxillary alveolar ridge. The terms Epstein pearls or Bohn's nodules are used to describe similar lesions located on the palate. They have a whitish color, due to their keratin content, and usually go undiagnosed as they rupture spontaneously and disappear without being noticed by the parents.

Congenital epulis is a rare lesion presenting as a mass on the alveolar ridge of newborns (Neville et al. 2009). It has a predilection for females and the anterior maxillary alveolar process. It usually presents as a pink solitary tumor, but it may appear erythematous due to inflammation and focal hemorrhage (Adeyemi et al. 2010), while presence of multiple lesions has been reported (Kumar et al. 2002, Parmigiani et al. 2004).

Melanotic neuroectodermal tumor is a rare neoplasm appearing during the first year of life and presents as a blue or black rapidly expanding mass of the jaws (Neville et al. 2009). A striking predilection for the maxilla and for males is reported. It presents an aggressive behavior, infiltrates and destroys the underlying bone, and may be associated with displacement of the developing teeth.

Hemangiomas and vascular malformations are the most common tumors of infancy and present congenitally or a few weeks after birth (Neville et al. 2009, Bonet-Coloma et al. 2011). They commonly involve the head and neck area, and manifest as solitary or multiple, compressible nodules or tumors, with red to blue color. As they may develop intra-osseously extending to the soft tissues of the alveolar ridge, radiographic examination is necessary for their evaluation. Jaw expansion,

περιστατικά κύστεων ανατολής σε οπίσθιες περιοχές της φατνιακής ακρολοφίας σε νεογνά της μαύρης φυλής ίσως αποτελούσαν λεμφαγγειώματα (Wilson και συν. 1986).

Τα αμαρτώματα είναι ογκόμορφοι σχηματισμοί αποτελούμενοι από ανώμαλα διατεταγμένους ώριμους ιστούς σε φυσιολογική θέση. Στη φατνιακή ακρολοφία νεογνών έχουν περιγραφεί ως οδοντογενή αμαρτώματα εξωφυτικοί όγκοι αποτελούμενοι από ώριμους μαλακούς και σκληρούς οδοντογενείς ιστούς (Agostini και συν. 2008). Τα οδοντογενή αμαρτώματα είναι εξαιρετικά σπάνια και μπορεί να σχετίζονται με προνεογιλά δόντια, ενώ σε μία περίπτωση συνυπήρχαν με πολλαπλές ουλικές και μία κύστη ανατολής (Hayes και συν. 2000).

Τέλος, ο όρος αιμάτωμα ανατολής (eruption hematoma) χρησιμοποιείται για να περιγράψει την συγκέντρωση αίματος είτε εξωτερικά του λεπτυνθέντος επιθηλίου της αδαμαντίνης (Ricci και συν. 2008) είτε μέσα στο κυστικό υγρό μιας κύστης ανατολής (Neville και συν. 2009). Συνεπώς, η διάκριση της κύστης ανατολής από το αιμάτωμα ανατολής θεωρείται πως έχει «ακαδημαϊκή» και μόνον αξία.

Οι περισσότερες κύστεις ανατολής ρήγνυνται αυτομάτως, συνήθως λίγες εβδομάδες μετά την εμφάνιση τους (Aquilo και συν. 1998, Hayes, 2000). Η χειρουργική αντιμετώπιση ενδείκνυται σε περιπτώσεις που η κύστη δεν υποστρέφει αυτόματα, διογκώνεται, εμποδίζει την ανατολή του υποκείμενου δοντιού, προκαλεί πόνο, παρεμβαίνει στη μάσηση ή δημιουργεί αισθητικά προβλήματα (Hayes, 2000, Ricci και συν. 2008). Προφυλακτική χειρουργική αφαίρεση συστήνεται σε περιπτώσεις ασθενών με επιβαρυμένο ιατρικό ιστορικό, λόγω του κινδύνου αιματογενούς διασποράς μικροβίων του στόματος, σοβαρής αιμορραγίας και καθυστέρησης στην επούλωση μετά από αυτόματη ρήξη της κύστης (Karp και Milner, 2009). Η χειρουργική αντιμετώπιση περιλαμβάνει συνήθως μαρσιποποίηση ή χειρουργική αφαίρεση με τη χρήση νυστεριού ή ηλεκτροκαυτήρα (Anderson, 1990, Boj και Garcia-Godoy, 2000, Bodner και συν. 2004, Karp και Milner, 2009). Αναφέρεται ένα περιστατικό στο οποίο χρησιμοποιήθηκε συσκευή laser (Er,Cr:YSGG) με επιτυχία (Boj και συν. 2006). Κατά τη μαρσιποποίηση γίνεται χειρουργική αφαίρεση της οροφής της κύστης και αναρρόφηση του υγρού περιεχομένου της, αποκαλύπτοντας τη μύλη του δοντιού, το οποίο μπορεί πλέον να ανατείλει φυσιολογικά (Bodner και συν. 2004, Boj και συν. 2006). Εξαγωγή του εμπλεκομένου δοντιού πραγματοποιείται όταν αυτό δεν μπορεί να διατηρηθεί στο φραγμό, συνήθως σε περιπτώσεις που η ρίζα του είναι πολύ κοντή (Bodner και συν. 2004).

Συμπερασματικά, παρ' όλο που οι κύστεις ανατολής σε νεογνά μπορεί να προκαλέσουν ανησυχία τόσο στους γονείς όσο και σε γιατρούς και οδοντιάτρους, η κλινική

mobility of involved teeth, pain, hemorrhage, bruit and pulsation on palpation are features indicative of an intra-osseous hemangioma (Neville et al. 2009).

Lymphangiomas are developmental malformations of lymph vessels that usually develop in the tongue (Neville et al. 2009). They have been described in approximately 5% of black infants on the alveolar ridge, usually on the posterior maxillary and lingual mandibular areas (Wilson et al. 1986). They manifest as small, normal-colored swellings that may be multiple and bilateral and resolve spontaneously (Wilson et al. 1986, Neville et al. 2009). As they are clinically similar to eruption cysts, differentiation is based on microscopic examination after surgical excision, thus it is thought that some previously reported cases of eruption cysts on the posterior alveolar ridge of black newborns could in fact represent lymphangiomas (Wilson et al. 1986).

Hamartomas are tumor-like formations consisting of abnormally arranged mature tissues in their normal location. Pedunculated tumors on the alveolar ridge of the newborns presenting mature soft and hard odontogenic tissues have been described as odontogenic hamartomas (Agostini et al. 2008). Odontogenic hamartomas are very rare and can be associated with natal teeth, while a case of a newborn presenting odontogenic harmatomas, multiple gingival cysts and one eruption cyst has also been reported (Hayes et al. 2000).

Finally, the term eruption hematoma has been applied to describe blood accumulation either externally to the residual enamel epithelium (Ricci et al. 2008) or in the cystic fluid of an eruption cyst (Neville et al. 2009). Therefore, the differentiation between eruption cyst and eruption hematoma is purely of academic importance.

Most eruption cysts rupture spontaneously, usually within a few weeks from presentation (Aquilo et al. 1998, Hayes, 2000). Lack of spontaneous regression, enlargement, impairment of tooth eruption, enlargement, pain, interference with feeding or esthetic considerations, are prime indications for surgical intervention (Hayes, 2000, Ricci et al. 2008). Prophylactic excision is also suggested in cases of patients with medical history, due to the risk of a hematogenous spread of oral microbes, of intermittent hemorrhage and delayed wound healing following spontaneous eruption (Karp and Milner, 2009). Surgical intervention is usually performed by marsupialization or surgical excision, using scalpel dissection or electrocautery (Anderson, 1990, Boj and Garcia-Godoy, 2000, Bodner et al. 2004, Karp and Milner, 2009). There is a single case report where laser treatment (Er,Cr:YSGG laser) was applied with success (Boj et al. 2006). During marsupialization, the dome of the cyst is excised and the liquid content is drained, exposing the crown of the tooth, which is therefore allowed to erupt (Bodner et al. 2004, Boj et

εικόνα σε συνδυασμό με την απουσία παθολογικών ακτινογραφικών ευρημάτων είναι συνήθως διαγνωστική.

al. 2006). On some occasions the tooth may be necessary to be extracted along with the cyst, usually when the tooth root is very short (Bodner et al. 2004).
In conclusion, although eruption cysts in newborns may be alarming for both parents and health care providers, clinical presentation, supported by the lack of significant radiographic findings, is usually diagnostic.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

Adeyemi BF, Oluwasola AO, Adisa AO: Congenital epulis. Indian J Dent Res 21:292-4, 2010

Agostini M, Leon M, Kellermann MG, Valiati R, Graner E, de Almeida OP: Myxoid calcified hamartoma and natal teeth: a case report. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 72:1879-83, 2008

Anderson RA: Eruption cysts: A retrograde study. ASDC J Dent Child 57:124-7, 1990

Aquilo L, Cibrian R, Bagan JV, Gandia JL: Eruption cysts: retrospective clinical study of 36 cases. ASDC J Dent Child 65:102-6, 1998

Bodner L: Cystic lesions of the jaws in children. Int J Pediat Otorhinolaryngol 62:25-9, 2002

Bodner L, Goldstein J, Sarnat H: Eruption cysts: a clinical report of 24 new cases. J Clin Pediatr Dent 28:183-6, 2004

Bonet-Coloma C, Mínguez-Martínez I, Palma-Carrió C, Galán-Gil S, Peñarrocha-Diago M, Mínguez-Sanz JM: Clinical characteristics, treatment and outcome of 28 oral haemangiomas in paediatric patients. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 16:e19-22, 2011

Boj JR, Garcia-Godoy F: Multiple eruption cysts: report of case. ASDC J Dent Child 67:282-4, 2000

Boj JR, Poirier C, Espasa E, Hernandez M, Jacobson B: Eruption cyst treated with a laser powered hydrokinetic system. J Clin Pediatr Dent 30:199-202, 2006

Clark CA: A survey of eruption cysts in the newborn. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 15:917, 1962

Cunha RF, Boer FAC, Torriani DD, Frossard WTG: Natal and neonatal teeth: review of the literature. Pediatr Dent 23:158-62, 2001

Hayes PA: Hamartomas, eruption cyst, natal tooth and Epstein pearls in a newborn. ASDC J Dent Child 67:365-8, 2000

Karp JM, Milner LA: Oral eruption cysts in a child with hepatoblastoma. J Pediatr Hematol Oncol 31:509-11, 2009

Kumar P, Kim HH, Zahtz GD, Valderrama E, Steele AM: Obstructive congenital epulis: prenatal diagnosis and perinatal management. Laryngoscope 11:1935-9, 2002

Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouqout JE. Oral and Maxillofacial Pathology. 3rd ed. St. Lewis: Saunders/Elsevier, 2009, pp. 533-5, 537-43, 547-9, 682

Nomura J, Tagawa T, Seki Y, Mori A, Nakagawa T, Sugatani T: Kinky hair disease with multiple eruption cysts. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endo 82:537-40, 1996

Parmigiani S, Giordano G, Fellegara G, Brevi B, Magnani C: A rare case of multiple congenital epulis. J Matern Fetal Neonatal Med 16:55-8, 2004

Peters R, Schock R: Oral cysts in newborn infants. Oral Surg 32: 10-4, 1971

Ricci HA, Parisotto TM, Giro EMA, Costa CA, Hebling J: Eruption cysts in the neonate. J Clin Pediatr Dent 32: 243-6, 2008

Seward MH: Eruption cyst: an analysis of its clinical features. J Oral Surg 31:31-5, 1973

Wilson S, Gould AR, Wolff C: Multiple lymphagiomas of the alveolar ridge in a neonate: case study. Pediatr Dent 8:231-4, 1986

Διεύθυνση επικοινωνίας:
Τόσιος Ι. Κωνσταντίνος
Θηβών 2
11527 Αθήνα
Τηλ.: . 210-7461003, Fax: 210-7461220
e-mail: ktosios@dent.uoa.gr

Address:
Tosios I. Konstantinos
2 Thivon Street
11527 Athens - Greece
Tel.: +302107461003, Fax: +302107461220
e-mail: ktosios@dent.uoa.gr