



Reçu le :  
5 décembre 2008  
Accepté le :  
6 juillet 2009  
Disponible en ligne  
31 mai 2010

Disponible en ligne sur  
 **ScienceDirect**  
[www.sciencedirect.com](http://www.sciencedirect.com)

# Les facteurs de risque de récurrence des kératokystes odontogéniques des maxillaires

## Risk factors for recurrence of maxillary odontogenic keratocysts

H. Chemli\*, M. Dhoub, F. Karray, M. Abdelmoula

Service de chirurgie maxillofaciale, CHU Habib Bourguiba, 3029 Sfax, Tunisie

### Summary

**Purpose.** The odontogenic keratocyst is a benign tumor with a high recurrence rate and aggressive behavior. We analyzed the risk factors for recurrence of odontogenic keratocysts and compared our results to published ones.

**Patients and methods.** Thirty-two patients (36 odontogenic keratocysts) were treated in our department between 1996 and 2006. We retrospectively analyzed recurrence according to anatomoclinic, histopathological, and prognostic parameters.

**Results.** The patients' mean age was 41 years. The sex ratio was 1.28 with male predominance. The mandible was the most common site (30 cases). The most common radiological finding was a unilocular cyst in 75 % of cases. The primary treatment was conservative surgery for all patients. Twelve recurrences were observed in eight patients between 2 and 10 years of follow-up. All recurrences occurred in the mandible with 41 % in the angle and ramus. Multilocular cysts recurred in 55 % of cases, unilocular in 11 %. The recurrence rate of orthokeratocysts was 40 %. The presence of satellite cysts and extension to soft tissues were associated with a high rate of recurrence (60 %). Sixty-six percent of infected cysts recurred and among these, eight were enucleated in several fragments.

**Discussion.** The recurrence rate of odontogenic keratocysts is higher in case of mandibular posterior region localization and multilocular keratocysts. This might be explained by the difficult surgical accessibility. Some histological findings including the presence of satellite cysts and orthokeratocysts are associated with a higher recurrence rate. Cyst infection and treatment modalities influence the recurrence rate.

© 2010 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

**Keywords:** Odontogenic cyst, Keratocyst

### Résumé

**Introduction.** Le kératokyste (KK) est une tumeur bénigne rare caractérisée par son agressivité locale et une forte tendance à la récurrence. Notre objectif était d'étudier les facteurs de risque de récurrence des KK et de confronter nos résultats à ceux de la littérature.

**Patients et méthodes.** Trente-six cas de KK ont été traités chez 32 patients entre 1996 et 2006. Nous avons étudié rétrospectivement les récurrences selon les différents paramètres radiocliniques, histologiques et pronostiques.

**Résultats.** L'âge moyen était de 41 ans avec une légère prédominance masculine (sex-ratio de 1,3). Trente localisations étaient mandibulaires. Une ostéolyse uniloculaire radiologique a été retrouvée dans 75 % des cas. Le traitement primaire a toujours été chirurgical et conservateur. Douze récurrences sont survenues chez huit patients, deux à dix ans plus tard. Toutes les récurrences étaient mandibulaires, 41 % au niveau de l'angle et du ramus. Les kystes multiloculaires ont récidivé dans 55 % des cas, les uniloculaires dans 11 %. Les récurrences concernaient 40 % des formes orthokératosiques. La présence de kystes satellites au niveau de l'épithélium de surface et l'extension aux parties molles ont conduit à 60 % de récurrences. Soixante-six pour cent des kératokystes infectés ont récidivé. Parmi les 12 kystes récidivés, huit ont été énucléés en plusieurs fragments.

**Discussion.** Le risque de récurrence des KK est d'autant plus grand que la localisation est postérieure (angle, ramus) et l'architecture multiloculaire. Cela pourrait s'expliquer par la difficulté d'accès à ces régions. Le type histologique orthokératosique et la présence de kystes satellites semblent aussi être associés à un taux élevé de récurrence. Dans notre étude, il existait une relation entre le taux de récurrence, l'infection du kyste et les conditions d'exérèse chirurgicale.

© 2010 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

**Mots clés :** Kyste odontogénique, Kératokyste

\* Auteur correspondant.  
e-mail : chemlihasen@yahoo.com (H. Chemli).

## Introduction

Le kératokyste ou kyste épidermoïde est une tumeur bénigne odontogénique des maxillaires peu fréquente. Elle a été décrite par Philipden en 1956, puis détaillée par Pindborg et Hansen en 1963 [1,2]. Cette tumeur est caractérisée par son agressivité locale et une forte tendance à la récurrence. Le pourcentage de récurrence varie de 2,5 à 62,5 % après traitement chirurgical [3]. Les signes clinico-radiologiques ne sont pas spécifiques et le diagnostic de certitude est histologique. Le kératokyste est souvent isolé, cependant il peut s'intégrer dans le cadre d'un syndrome polymalformatif : syndrome de Gorlin-Goltz qui associe de multiples kératokystes, une naevomatose basocellulaire et des anomalies squelettiques [4]. Nous avons cherché des facteurs pronostiques à partir de 36 kératokystes diagnostiqués chez 32 patients.

## Patients et méthodes

Les caractéristiques anatomocliniques, histologiques et pronostiques de ces derniers patients ont été analysées.

## Résultats

Entre 1996 et 2006, 220 patients ont été pris en charge dans le service pour kyste odontogénique des maxillaires. Trente-deux patients, soit 16 % avaient un kératokyste. Trois patients présentaient de multiples localisations.

L'âge moyen était de 41 ans (8-64 ans) avec une légère prédominance masculine (sex-ratio de 1,3). Nous avons noté deux pics de fréquence : 11 à 20 ans (25 %) et 31 à 40 ans (28 %). Le motif de consultation était une tuméfaction chez 25 patients (78 %). Les autres manifestations cliniques étaient variées : douleur (40 %), signes inflammatoires (37 %), fistule muqueuse (28 %) ; paresthésie labiomentonnière (3 %). Dans trois cas, la découverte a été fortuite sur une radiographie. Trente localisations étaient mandibulaires (83 %) : branche horizontale (39 %), angle et ramus (33 %) et symphyse (11 %). Dans 75 % des cas, la lésion était ostéolytique et uniloculaire, et dans 25 % des cas, elle était multiloculaire (fig. 1). Le canal mandibulaire était refoulé dans 12,5 % des cas. Il existait une rhizalysse dans 50 % et un refoulement dentaires dans 31 % des cas.

La tomographie (TDM) a été systématique pour les localisations maxillaires (n = 6) et effectuée dans 13 localisations mandibulaires (fig. 2). Les localisations étaient multiples dans trois cas (fig. 3) dont deux entraient dans le cadre d'un syndrome de Gorlin-Goltz. L'une de ces patientes présentait un front large, un hypertélorisme, et une fente labiopalatine (fig. 4). L'autre avait des calcifications de la faux du cerveau (fig. 5) et des fibromes ovariens.



Figure 1. Lésion ostéolytique multiloculaire, bien limitée, avec rhizalysse et refoulement dentaire.

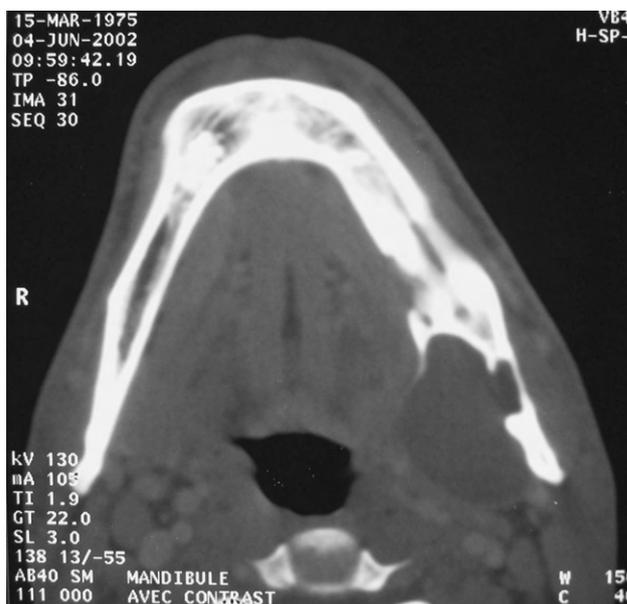


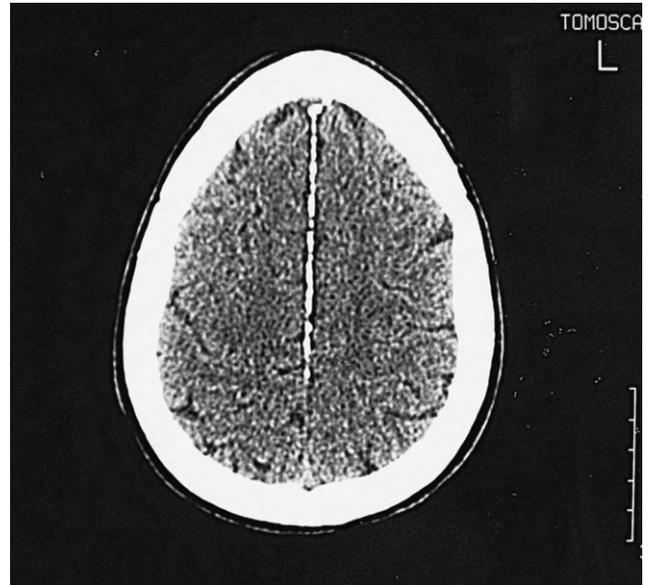
Figure 2. Coupe axiale tomographique montrant une image radio-claire au niveau de l'angle et de la branche montante avec rupture corticale interne et extension vers les parties molles.



Figure 3. Localisations multiples de kératokyste au niveau des 2 angles mandibulaires et le ramus gauche chez une patiente atteinte d'un syndrome de Gorlin-Goltz.



**Figure 4.** Patiente ayant un front large, une bosse frontopariétale, un hypertélorisme et une fente labiopalatine dans le cadre d'un syndrome de Gorlin-Goltz.



**Figure 5.** Scanner cérébral montrant les calcifications de la faux du cerveau.

Dans 18 cas, le traitement a été conservateur associé à des extractions dentaires et/ou résection des parties molles adjacentes.

La variante histologique a été le kyste parakératosique dans 58 % des cas, la forme mixte dans 28 % et la forme orthokératosique dans 13 %. Des kystes satellites de la paroi ont été retrouvés dans cinq cas (14 %).

L'évolution a été marquée par la survenue de 12 récurrences chez les huit patients (quatre hommes et quatre femmes). Quatre

patients ont eu plus de deux récurrences. La récurrence a été observée dans toutes les tranches d'âge. Le détail des récurrences est exposé dans le (tableau 1). Toutes les récurrences étaient mandibulaires, dont 41 % au niveau de l'angle et du ramus. Les kystes multiloculaires ont récidivé dans 55 % des cas, les uniloculaires dans 11 %. Les récurrences concernaient 40 % des formes orthokératosiques. La présence de kystes satellites au niveau de l'épithélium de surface et l'extension aux parties molles ont conduit à 60 % de récurrences. Soixante-sept pour cent des kystes infectés ont récidivé. Parmi les 12 kystes récurrences, ont été énucléés en plusieurs fragments.

Le traitement des récurrences a été conservateur dans cinq cas, élargi aux parties molles dans six cas et radical avec résection osseuse large dans un cas. Un blocage bimaxillaire a été réalisé dans quatre cas en raison du risque de fracture.

**Tableau 1**  
Étude des récurrences selon les différents paramètres.

Paramètres	Récurrence (nombre de cas)	%
<i>Localisation</i>		
Symphyse	1/4	25
Branche horizontale	2/14	14
Angle et branche montante	5/12	41
Maxillaire	0/6	0
<i>Aspect radiologique</i>		
Multiloculaire	5/9	55
Uniloculaire	3/27	11
Infection	6/9	66
<i>Type histologique</i>		
Parakératosique	4/21	19
Orthokératosique	2/5	40
Mixte	2/10	20
Kystes satellite	3/5	60
Extension aux parties molles	4/6	66
<i>Type d'exérèse</i>		
En plusieurs fragments	8/12	67
En un seul fragment	4/12	33

## Discussion

Le risque de récurrence du KK est d'autant plus grand qu'il est situé à l'angle ou au ramus, qu'il est multiloculaire, infecté, de type histologique orthokératosique, qu'il y a des kystes satellites de l'épithélium de surface, une extension vers les parties molles et que l'exérèse a été faite en plusieurs fragments.

L'agressivité et la forte tendance du KK à la récurrence serait due à la production d'enzymes fibrinolytiques, de prostaglandines et à la haute activité mitotique du kyste [5-7]. Le pourcentage de récurrence varie de 2,5 à 62,5 % [3]. Dans notre étude, il est de 25 %.

La relation entre le taux de récurrence, l'âge et le sexe est controversée. Ahlfors et al. rapportent une relation avec le sexe [8], ce que nous n'avons pas retrouvé dans notre étude.

Dans notre série, les récurrences ont été observées dans toutes les tranches d'âge.

La taille du kyste n'est pas corrélée avec un taux de récurrence plus important [9], alors que la topographie (angle, ramus) et l'aspect (multiloculaire) semblent être des facteurs de risque de récurrence. Cela pourrait s'expliquer par la difficulté d'accès des régions angulaires ou ramiques lors de l'exérèse, notamment dans les formes multiloculaires [10,11].

Dans notre étude, l'infection du kyste est corrélée au taux de récurrence, ce qui est rapporté par d'autres auteurs [12].

La relation entre la récurrence et le type histologique, notamment parakératosique est controversée [13]. Nous avons constaté que le taux de récurrence des formes orthokératosiques (40 %) est plus important que les formes parakératosiques (19 %).

La présence de kystes satellites au niveau de l'épithélium de surface et l'extension aux parties molles sont corrélées avec un taux élevé de récurrence [14,15], elle est de 60 % dans notre étude. Enfin, les conditions d'exérèse tumorale constituent un facteur pronostique important. Les kystes énucléés en une seule pièce récidivent moins que ceux énucléés en plusieurs fragments [12,13]. Dans notre série, huit kystes récidivés (75 %), huit ont été énucléés en plusieurs fragments.

Plusieurs auteurs recourent à une cautérisation, un curetage agressif après énucléation, voire à un traitement radical afin d'éliminer l'épithélium de surface résiduel, source de récurrences [16,17]. Cependant, des cas de récurrences ont été décrits jusqu'à 20 ans après une résection osseuse ou sur greffons de reconstruction osseuse [18,19].

## Conflit d'intérêt

Les auteurs n'ont pas transmis de conflit d'intérêt.

## Références

- [1] Myoung H, Hong SP, Hong SD, Lee JI, Lim CY, Choung PH, et al. Odontogenic keratocyst: review of 256 cases for recurrence and clinicopathologic parameters. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2001;91:328-33.
- [2] Meara JG, Li KK, Shah SS, Cunningham MJ. Odontogenic keratocysts in the pediatric population. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1996;122:725-8.
- [3] Voorsmit RA, Stoeltinga PJ, Van Haelst UJ. The management of keratocysts. *J Maxillofac Surg* 1981;9:228-36.
- [4] Salmon B, Princ G, Wierzba CB. Kératokystes odontogènes dans le cadre d'un syndrome de Gorlin : à propos d'un cas clinique. *Arch Pediatr* 2008;15:406-9.
- [5] Bell RB, Dierks EJ. Treatment options for the recurrent odontogenic keratocyst. *Oral Maxillofacial Surg Clin N Am* 2003;15:429-46.
- [6] Scharffetter K, Balz-Herrmann C, Lagrange W, Koberg W, Mittermayer C. Proliferation kinetics—study of the growth of keratocysts. Morpho-functional explanation for recurrences. *J Craniomaxillofac Surg* 1989;17:226-33.
- [7] Attenborough NR. Recurrence of an odontogenic keratocyst in a bone graft: report of a case. *Br J Oral Surg* 1974;12:33-9.
- [8] Ahlfors E, Larsson A, Sjogren S. The odontogenic keratocyst: a benign cystic tumor? *J Oral Maxillofac Surg* 1984;42:10-9.
- [9] Forssell K, Forssell H, Kahnberg KE. Recurrence of keratocysts in a long-term follow-up study. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1988;17:25-8.
- [10] Forssell K. The primordial cyst, a clinical and radiographic study. *Proc Finn Dent Soc* 1980;76:129-35.
- [11] Partridge M, Towers JF. The primordial cyst (odontogenic keratocyst): its tumour-like characteristics and behaviour. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1987;25:271-9.
- [12] Thyne GM, Hunter KM. Primary reconstruction of the mandible with iliac bone and titanium implants following resection of a recurrent odontogenic keratocyst. *N Z Dent J* 1994;90:56-9.
- [13] Anand VK, Arrowood Jr JP, Krolls SO. Odontogenic keratocyst: a study of 50 patients. *Laryngoscope* 1995;105:14-6.
- [14] Panders AK, Haddlers HN. Solitary keratocysts of the jaws. *J Oral Surg* 1969;27:931-8.
- [15] Anand VK, Arrowood Jr JP, Krolls SO. Malignant potential of the odontogenic keratocyst. *Otolaryngol Head Neck Surg* 1994;111:124-9.
- [16] Waldron CA. Odontogenic cyst and tumors. In: Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE, editors. *Oral and maxillofacial pathology*. Philadelphia: WB Saunders; 1995. p. 499-500.
- [17] Irvine GH, Bowerman JE. Mandibular keratocysts: surgical management. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1985;23:204-9.
- [18] Worrall SF. Recurrent odontogenic keratocyst within the temporalis muscle. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1992;30:59-62.
- [19] Blanchaert RH, Ord RA. Vertical ramus compartment resection of the mandible for deeply invasive tumors. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:15-22.