

ABSTRACT

BAGGRUND - Odontogen myksom og perifert odontogen myksom er sjældne benigne odontogene tumorer, der udelukkende forekommer i de tandbærende områder af kæberne. Odontogen myksom er en intraossøs tumor, der hyppigst er lokaliseret i underkæben, og ses overvejende hos unge voksne. Perifert odontogen myksom er lokaliseret i blødtvæv.

PATIENTTILFÆLDE - En 28-årig kvinde blev henvist til Kæbekirurgisk Afdeling, Sydvestjysk Sygehus Esbjerg, Syddansk Universitetshospital, for fjernelse af slimhindeforandring på gingiva. Der blev foretaget en incisionsbiopsi, og forandringen var histologisk forenelig med oral fokal mucinose. Excision af hele forandringen og simultan rekonstruktion med frit transplantat af ganeslimhinde blev foretaget. For nyet histologisk undersøgelse viste mod forventning et perifert odontogen myksom. Ved kontrol tre år efter excision af forandringen fandtes sunde forhold og ingen tegn på recidiv.

KONKLUSION - Diagnosen perifert odontogen myksom skal verificeres ved histologisk undersøgelse. Perifert odontogen myksom behandles ved kirurgisk excision og curettage, og recidivfrekvensen er lav.

EMNEORD Odontogenic tumor | myxoma | diagnosis | operative procedure | pathology



Korrespondanceansvarlig førsteforfatter:
EMIL HYLDAHL
emil.hyldahl@outlook.com

Perifert odontogen myksom

EMIL HYLDAHL, stud.odont., Odontologisk Institut, Det sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet

NIELS KORSGAARD, specialeansvarlig overlæge, Afdeling for Klinisk Patologi, Sydvestjysk Sygehus Esbjerg, Syddansk Universitetshospital, Esbjerg

KRISTOFFER SCHWARTZ, overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Sydvestjysk Sygehus Esbjerg, Syddansk Universitetshospital

KRISTIAN THESBJERG, overtandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Sydvestjysk Sygehus Esbjerg, Syddansk Universitetshospital

► Accepteret til publikation den 3. februar 2022

Tandlægebladet 2022;126:524-9

DET ODONTOGENE MYKSOM (OM) er en sjælden forekommende benign odontogen tumor (1). Tumoren blev første gang beskrevet i 1947 og klassificeres af WHO som en benign odontogen tumor med mesenky-mal oprindelse (2). Det menes, at tumoren opstår fra dentalfolliklen, dentalpapillen eller parodontalligamentet, men den præcise baggrund er ukendt (1,3,4). OM forekommer udelukkende i de tandbærende områder af kæberne med en øget hyppighed i underkæben, heraf optræder 28 % i den posteriore region af underkæben (1,5-7). OM ses overvejende hos unge voksne med en gennemsnitsalder på 25-30 år og med ligelig fordeling mellem mænd og kvinder (5). OM er en central læsion, som er lokaliseret intraossøst, og det perifere odontogene myksom (POM) er lokaliseret i blødtvæv. POM kan forekomme med knogledestruktion. Sammenlignet med det centrale odontogene myksom har POM lavere incidens og mindre aggressiv vækst (1,3,4,7,8). POM med knogledestruktion forekommer oftere hos ældre mænd, og progressionshastigheden er højere end ved POM uden knogledestruktion (8). Klinisk karakteriseres POM som en eksofytisk gingival proces med upåvirket overfladeepitel, og tumoren kan forårsage migration og kipning af tænder (3,6). Radiologisk kendetegnes OM som en unilokulær eller multilokulær radiolucens eventuelt med resorption eller displace-

ring af tænder i relation til tumoren. Radiolucensen kan ved større OM ofte have et sæbeboblelignende mønster, hvorfor det radiologisk kan forveksles med ameloblastom (5). Specifikke radiologiske karakteristika for POM er ikke entydigt beskrevet, men i tilfælde med POM uden knogledestruktion kan tumor fremstå som et radiopakt område svarende til tumorens base eller helt uden radiologiske forandringer. Ved forekomst af knogledestruktion vil dette ofte ses som en unilokulær radiolucens (1,3,7,8).

Histologisk fremstår POM med vilkårligt arrangerede stellate, tenformede og runde celler i et løst myksoidt stroma indeholdende kollagenfibriller. Små øer af odontogent epitel kan undertiden ses spredt i stromaet (6,7).

POM behandles sædvanligvis ved kirurgisk ekscision og curettage, og recidivfrekvensen for POM er lav (3,7,8).

I nærværende artikel præsenteres et patienttilfælde, hvor en ung kvinde biopteres og behandles for en bredbaset forandring på gingiva i underkæbens tandbærende område.

PATIENTTILFÆLDE

Henvisningsforløb

En 28-årig kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Sydvestjysk Sygehus Esbjerg, Syddansk Universitetshospital, for fjernelse af slimhindeforandring på den marginale gingiva regio -6. Patienten var seks år tidligere blevet set på samme afdeling, hvor forandringen klinisk blev diagnosticeret som en fibrøs epulis (Fig. 1A). På grund af lokaliseringen på den fastbundne gingiva og risiko for retraktion efter kirurgisk excision besluttede man i samråd med patienten at observere slimhindeforandringen. Efter seks måneders kontrol var forandringen uændret i størrelse og form, og patienten havde fortsat ingen gener eller symptomer, hvorfor patienten blev afsluttet til kontrol ved egen tandlæge. Henvisende tandlæge havde over det seneste år observeret en langsom tilvækst af forandringen, og patienten oplevede samtidig begyndende ømhed fra forandringen. Fraset ømheden angav patienten ingen symptomer fra området.

Klinisk undersøgelse

Ekstraoralt

Ingen hævelse eller rødme af huden. Ingen hævede lymfeknuder på halsen.

Intraoralt

Pænt og velholdt tandsæt med god mundhygiejne. Facialt på fastbunden gingiva regio -6 sås en bredbaset hævelse med en diameter på 8 mm (Fig. 1B). Forandringen var let forskubbelig og hård ved palpation.

Tentativ diagnose og udredning

På baggrund af det kliniske billede var den tentative diagnose perifert ossificerende fibrom (kalcificerende fibroblastisk granulom). Der blev i lokalanalgesi foretaget en 2 x 4 mm incisionsbiopsi af forandringen. Dette blev udført med henblik på endelig diagnostik og planlægning af kirurgisk excision med rekonstruktion af gingiva.

Udviklingen af perifert odontogent myksom



Fig. 1 A. Forandringen i den posteriore del af mandiblen. Første konsultation hvor den kliniske diagnose, fibrøs epulis, blev stillet. **B.** Seks år efter første konsultation. Forøget størrelse af forandringen.

Fig. 1 A. The location of the lesion at the posterior part of the mandible. The first consultation. The clinical diagnosis was fibrous epulis (inflammatory fibrous hyperplasia). **B.** Six years after the first consultation. Increased size of the lesion.

Histologisk undersøgelse

Præparatet bestod af et vævsstykke beklædt med epitel, som viste både parakeratose, let hyperkeratose og akantose. Det akantotiske epitel var veldifferentieret uden tegn på dysplasi. I det underliggende stroma fandtes fibrøst kollagent bindevæv med spredte kar og let inflammation. Dybere i vævet sås udtalt mukoid degeneration. Forandringerne var forenelige med oral fokal mucinose.

Behandling

I lokalanalgesi blev der foretaget excision af hele forandringen, som derefter blev sendt til histologisk undersøgelse (Fig. 2). Herefter supraperiostal dissektion og tunnelering i periferien af biopsistedet (Fig. 3A), hvorved der blev skabt en lomme til placering af det frie slimhindetransplantat. Fra ganen blev ▶

Tumoren



Fig. 2. Komplet fjernelse af tumoren.
Fig. 2. Complete removal of the tumour.

der udtaget et slimhindetransplantat med både epitel og bindevæv (9). Det høstede væv blev de-epiteliseret svarende til områderne, som blev placeret i den præparerede lomme. Transplantatet blev herefter fikseret med resorberbar sutur (Fig. 3B) både for fiksering og komprimering mod den underliggende recipientoverflade.

Opfølgning

Patienten blev set til kontrol og histologisvar efter to uger. Patienten berettede om forholdsmæssigt kraftige gener fra donorstedet i form af smerter og irritation ved fødeindtag, som nu var komplet regredieret. Der var ingen gener fra recipientområdet. Objektivt fandtes anslag af transplantatet og forventelige forhold med erytem svarende til transplantatet (Fig. 4A). Svarende til donorstedet fandtes sekundær heling med granulationsvæv. Ingen tegn på infektion eller dehiscens ved hverken donor- eller recipientsted.

Peroperativ excision og rekonstruktion



Fig. 3. A. Ekscision af hele forandringen, suprapariosteal dissektion og tunnelling i periferien af biopsistedet. **B.** Fiksering af slimhindetransplantat fra ganen med resorberbar sutur.
Fig. 3. A. Excision of the lesion, suprapariosteal dissection and tunneling at the periphery of the biopsy site. **B.** Fixation of mucous membrane from the palate with absorbable suture.

Den histologiske undersøgelse viste en uafkapslet Alcian-blue positiv myksoïd tumor opbygget af et delikat fibrillært stroma med tilfældigt arrangerede fibroblastlignende celler med kantede, aflange eller runde kerner uden nukleær atypi eller mitoser. Desuden fandtes enkelte hyaliniserede fortykkede blodkar og få perifert beliggende rester af odontogent epitel. Immunhistokemisk fandtes diffus positiv reaktion for vimentin svarende til de mesenkymalt derivede fibroblaster og fokal positiv reaktion for glat muskel aktin i de fortykkede små blodkar. De fibroblastiske celler var S100 negative, hvilket også er karakteristisk for POM (Fig. 5). Dette udelukker endvidere myksoïdt neurofibrom, som er en histologisk differentialdiagnose (5).

Der blev efter det histologiske svar foretaget røntgenundersøgelse i form af CBCT-optagelse af området. Denne viste normale forhold uden tegn på ossøse forandringer svarende til lokaliseringen af det tidligere POM.

Et og tre år efter ekscision af forandringen fandtes sunde gingivale forhold uden tegn på recidiv (Fig. 4B).

DISKUSSION

I nærværende artikel præsenteres en 28-årig kvinde med POM. Læsionen blev observeret i seks år, før den blev ekscideret. I forbindelse med ekscisionen blev der simultant foretaget rekonstruktion af gingiva, som viste stabile og recidivfrie forhold i observationstiden.

De primære differentialdiagnostiske overvejelser til POM i klinikken indebærer perifert kæmpecellegranulom, pyogent

klinisk relevans

Perifert odontogent myksom er en sjældent forekommende perifer odontogen tumor. Grundet sin sjældenhed udelukkes den ofte som differentialdiagnose ved ekstraossøse proliferationer. Histologisk kan tumoren være vanskelig at skelne fra andre tumorer med myksoide egenskaber, som ofte viser maligne træk. Kendskab til de kliniske karakteristika ved perifert odontogent myksom og differentialdiagnoser er derfor væsentligt i forbindelse med diagnostik og behandling af slimhindeforandringer i mundhulen.

granulom, calcificerende fibroblastisk granulom og oral fokal mucinose. Perifert kæmpecellegranulom, pyogent granulom og calcificerende fibroblastisk granulom er reaktive hyper-

Kontrol



Fig. 4. A. 2-ugers kontrol. Ingen tegn på recidiv. **B.** 3-års kontrol. Ingen tegn på recidiv.

Fig. 4. A. 2 weeks follow-up. No sign of recurrence. **B.** 3-years follow-up. No sign of recurrence.

Histologi

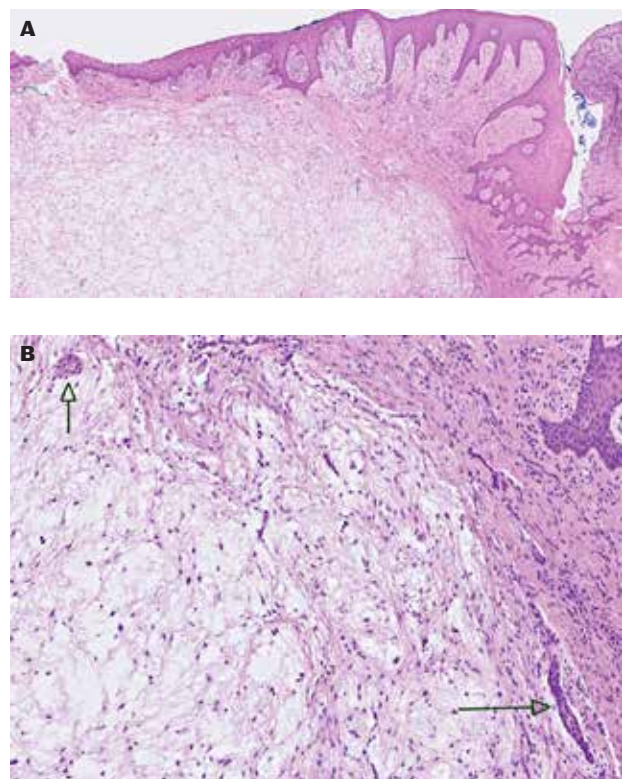


Fig. 5. A. Mikroskopisk billede af et udsnit af den myksoide uafkapslede tumor med løst retikulært kollagen. Hematoxylin-eosin farvning **B.** Udsnittet indeholder fibroblaster med vekslende morfologi samt et hyaliniseret fortykket blodkar (lodret pil) og perifert beliggende odontogent epitel (vandret pil).

Fig. 5. A. Microscopic picture of a section of the non-encapsulated myxoid tumor with loose reticular collagen. Haematoxylin and eosin staining **B.** The section contains fibroblasts with varying morphology together with hyalinization of a thickened blood vessel (vertical arrow) and peripheral placed odontogenic epithelium (horizontal arrow).

plasier og menes induceret af et lokalt traume. Derudover kan pyogent granulom induceres af hormonelle forandringer (5,10-15). Ætiologien for oral fokal mucinose er ukendt (5, 16,17). Fælles for alle de nævnte læsioner er, at de kan være både stilkede og bredbaserede. Endvidere er de relativt små med rapporterede gennemsnitsstørrelser på 0,6-1,3 cm. Det er gældende for alle differentialdiagnoser på nær oral fokal mucinose, at de kan udvikle sig til større læsioner. Behandlingen for alle fire differentialdiagnoser er kirurgisk ekscision. For de nævnte reaktive hyperplasier gennemføres ekscisionen til periost, og eventuelle traumatiserende forhold fra nærtliggende tænder fjernes (5,11-14,16,18).

Perifert kæmpecellegranulom forekommer ofte i alderen 35-45 år og er ligeligt fordelt mellem mænd og kvinder. Recidivfrekvensen er 5-11 % (13). Læsionen forekommer kun på gingiva eller tandløs alveolær slimhinde, og det tyder på, at underkæben er en anelse oftere afficeret end overkæben. Klinisk er tilstanden karakteriseret ved mørkerød til blård farve, høj blødningstendens og eventuelt ulceration (5,13), hvilket ikke ses ved POM.

Pyogent granulom forekommer hyppigst hos kvinder i alderen 30-40 år, især under graviditet. Læsionen er hyppigst lokaliseret på gingiva, og der forekommer en anelse hyppigere affektion af overkæben, særligt i frontregionen (5,13,14). Recidivfrekvensen er omkring 16 % (13). Klinisk fremstår elementet med enten lobuleret eller glat overflade og rød, lilla eller lyserød farve. Derudover er overfladen ofte ulcereret, og forandringen har ligeledes en høj blødningstendens (5), hvilket ikke er foreneligt med POM.

Kalcificerende fibroblastisk granulom ses hyppigst i alderen 25-35 år og forekommer oftere hos kvinder end mænd. Recidivfrekvensen er 8-20 %. Læsionen er lokaliseret eksklusivt på gingiva, hyppigst i overkæbens frontregion og udgår ofte fra interdentalpapiller. Farven kan variere fra oftest lyserød til mere rødlige nuancer. Klinisk er overfladen karakteriseret ved ofte at have en glat og sjældnere en noduleret overflade. Overfladen kan være ulcereret (5,10,12-15,18). Denne forandring er med sin normale slimhindefarve og i tilfælde uden ulceration sammenlignelig med POM.

Oral fokal mucinose ses oftest i alderen 38-48 år og afficerer hyppigst kvinder. Recidivfrekvensen er meget lav. Klinisk

fremstår læsionen nodulær og ofte med en glat overflade uden ulceration. Derudover har læsionen ofte samme farve som den omgivende slimhinde. Læsionen er oftest lokaliseret på gingiva (5,16,17). Oral fokal mucinose og ikke ulcereret kalcificerende fibroblastisk granulom er derfor de to klinisk mest oplagte differentialdiagnostiske tilstande til POM.

Da recidivfrekvensen varierer en del for de ovennævnte tilstande, kan det ved større læsioner, eller hvor ekscision af processen kræver primær rekonstruktion, være nødvendigt at foretage en diagnostisk biopsi. Herved kan ekscision og rekonstruktion planlægges mest hensigtsmæssigt. I nærværende patienttilfælde var der desværre uoverensstemmelse mellem den udtagne biopsi og ekscisionshistologien. Havde den diagnostiske biopsi allerede fra starten vist POM, ville ekscisionsgrænserne have været udvidet, og størrelsen af det frie transplantat have været større. Dette har dog ikke haft klinisk betydning for det endelige behandlingsresultat i det aktuelle tilfælde. Årsagen til diskrepansen mellem den primære og endelige diagnose var, at den diagnostiske biopsi var taget fra overfladen umiddelbart under slimhinden. Der var derfor kun fundet et myksomatøst stroma og ikke nogen odontogene epitelrester og kar. Dette illustrerer det velkendte forhold, at man ikke altid skal forlade sig på histologisk diagnostik af overfladiske biopsier.

I det aktuelle patienttilfælde blev der foretaget kontrol et og tre år efter behandling uden tegn på recidiv. Disse observationer stemmer overens med litteraturen, der konkluderer, at recidivfrekvensen for POM er lav (3). Eftersom POM er mindre aggressivt voksende end den centrale type (1,3,7), er det forventeligt, at POM har en relativt lav recidivfrekvens. Den langsomme vækst af POM ligger desuden til grund for, at patientforløbet har strakt sig over ni år.

Diagnostik af POM er nødvendig for optimal behandlingsplanlægning (3). Grundet sin sjældenhed udelukkes POM ofte som differentialdiagnose til ekstraossøse proliferationer (7). Kun få artikler omhandlende POM eksisterer. Hvis flere lignende eller større systematiske oversigtsartikler i fremtiden publiceres inden for området, kan det tænkes, at POM vil få sin egen plads i WHO's klassifikation af hoved- og halstumorer (3). Dette kan give mulighed for, at POM oftere diagnosticeres og behandles korrekt fremover. ♦

ABSTRACT (ENGLISH)

PERIPHERAL ODONTOGENIC MYXOMA

BACKGROUND - Odontogenic myxoma and peripheral odontogenic myxoma are rare benign odontogenic tumours occurring only in the tooth-bearing areas of the jaws. Odontogenic myxoma is an intraosseous tumour most frequently located in the mandible and occurs predominantly in young adults. Peripheral odontogenic myxoma is located in soft tissue.

CASE STUDY - A 28-year-old female was referred to the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, University Hospital of Southern Denmark, Esbjerg, for removal of a mucosal

lesion on gingiva. An incision biopsy was made, and histological examination revealed oral focal mucinosis. Excision of the lesion was performed, together with reconstruction with a free palatal mucosal graft. Histological examination revealed peripheral odontogenic myxoma. 3-years follow-up showed no sign of recurrence.

CONCLUSION - The diagnosis peripheral odontogenic myxoma is confirmed by histological examination. Peripheral odontogenic myxoma is treated by surgical removal and curettage. The recurrence rate is low.

LITTERATUR

1. Jain VK, Reddy SN. Peripheral odontogenic myxoma of maxillary gingiva: A rare clinical entity. *J Indian Soc Periodontol* 2013;17:653-6.
2. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR et al. WHO Classification of head and neck tumours. 4th ed. Lyon: WHO 2017;9:229-30.
3. Aytac-Yazicioglu D, Eren H, Gorgun S. Peripheral odontogenic myxoma located on the maxillary gingiva: report of a case and review of the literature. *Oral Maxillofac Surg* 2008;12:167-71.
4. Gupta S, Grover N, Kadam A et al. Odontogenic myxoma. *Natl J Maxillofac Surg* 2013;4:81-3.
5. Neville B, Damm DD, Allen C et al. Oral and maxillofacial pathology. 4th ed. St. Louis, Missouri: Elsevier, 2015;473-532;679-81.
6. Raubenheimer EJ, Noffke CE. Peripheral odontogenic myxoma: a review of the literature and report of two cases. *J Maxillofac Oral Surg* 2012;11:101-4.
7. Tasnime S, Saxena C, Bansal V et al. Peripheral odontogenic myxoma. *Indian J Dent Res* 2016;27:437-40.
8. Shimoyama T, Horie N, Kato T et al. Soft tissue myxoma of the gingiva: report of a case and review of the literature of soft tissue myxoma in the oral region. *J Oral Sci* 2000;42:107-9.
9. Zucchelli G. Mucogingival esthetic surgery. 1st ed. Milan: Quintessenza Edizioni, 2013;379-401.
10. Reddy V, Saxena S, Saxena S et al. Reactive hyperplastic lesions of the oral cavity: A ten year observational study on North Indian Population. *J Clin Exp Dent* 2012;4:e136-40.
11. Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK. Oral pathology: clinical pathologic correlations. 7th ed. St. Louis, Missouri: Elsevier, 2017;114-31;161-82;269-88.
12. Buchner A, Hansen LS. The histomorphologic spectrum of peripheral ossifying fibroma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1987;63:452-61.
13. Kfir Y, Buchner A, Hansen LS. Reactive lesions of the gingiva. A clinicopathological study of 741 cases. *J Periodontol* 1980;51:655-61.
14. Eversole LR, Rovin S. Reactive lesions of the gingiva. *J Oral Pathol* 1972;1:30-8.
15. Sköldstam J, Blæhr TL, Vesterkær SM. Kalcificerende fibroblastisk granulom med recidiv. *Tandlægebladet* 2018;122:228-32.
16. Silva Cunha JL, Leite AA, de Castro Abrantes T et al. Oral focal mucinosis: A multi-institutional study and literature review. *J Cutan Pathol* 2021;48:24-33.
17. Higuchi Y, Tsushima F, Sumikura K et al. Diagnosis and treatment of oral focal mucinosis: a case series. *J Med Case Rep* 2019;13:108.
18. Kenney JN, Kaugars GE, Abbey LM. Comparison between the peripheral ossifying fibroma and peripheral odontogenic fibroma. *J Oral Maxillofac Surg* 1989;47:378-82.