

Mandibula yerleşimli anevrizmal kemik kisti: Olgu sunumu

Aneurysmal bone cyst of the mandible: a case report

Dr. Ender İNCİ,¹ Dr. Harun CANSIZ,¹ Dr. Ender GÜÇLÜ,² Dr. Cem HIZLI³

Anevrizmal kemik kisti (AKK), daha sık olarak uzun kemiklerde ve vertebrada görülen, kraniofasiyal bölgede ise nadir rastlanan selim bir lezyondur. Dokuz yaşındaki erkek çocukta, sol preauriküler bölgede, düzgün sınırlı, ağrısız, fikse, fluktuasyon ve krepitasyon vermeyen, 3x3 cm boyutunda bir kitle saptandı. Bilgisayarlı tomografi incelemesinde, sol mandibula ramusunda, mandibüler kondile uzanım gösteren, komşuluğundaki korteksi erode etmiş, içerisinde sıvı-sıvı seviyesi bulunan lezyon görüldü. Genel anestezi altında transoral yaklaşımla kitleye total küretaj uygulandı. Histopatolojik inceleme sonucu anevrizmal kemik kisti tanısı kondu. Hastanın dört yıllık izleminde lokal nüks veya komplikasyona rastlanmadı.

Anahtar Sözcükler: Kemik kisti, anevrizmal/cerrahi; küretaj; mandibüler hastalıklar.

Aneurysmal bone cyst is a benign lesion that is more commonly seen in long bones and the vertebra. Its occurrence in the craniofacial region is rare. A nine-year-old boy presented with a well-demarcated, painless, fixed mass, 3x3 cm in size, in the left preauricular region, with no fluctuation or crepitation. Computed tomography showed a lesion in the left mandibular ramus with a fluid-fluid level, extending to the mandibular condyle, with erosion to the adjacent cortex. Total curettage was performed via a transoral approach under general anesthesia. Histopathologic diagnosis was made as an aneurysmal bone cyst. No recurrence or complication were seen during a follow-up period of four years.

Key Words: Bone cysts, aneurysmal/surgery; curettage; mandibular diseases.

Anevrizmal kemik kisti, ne kist ne de anevrizmadır, içi epitelle döşeli olmayan, kanla dolu kistik kavitelerden oluşan iyi huylu bir lezyondur.^[1] Primer kemik tümörlerinin yaklaşık %70'i uzun kemiklerde (%50) ve vertabralarda (%20) görülür.^[2,3] Anevrizmal kemik kisti kraniofasiyal bölgede nadirdir. Mandibula maksilladan daha sık tutulmaktadır,^[2,3] genellikle gövde ve ramusu tutar. Anevrizmal kemik kisti çenenin nonodontojenik ve nonepitelial kistlerinin %1.5'ini oluşturur. Tüm AKK'ların yaklaşık %1.9'u çenede görülür.^[4]

Anevrizmal kemik kisti çoğunlukla genç erişkin ve çocukların hastalığıdır. Kadınlarda biraz daha sık görülmekle birlikte belirgin bir cinsiyet ayrımı yoktur.

Klinik olarak, büyüme gösteren bir kitle, fasiyal deformite, maloklüzyon ve daha az sıklıkla beraberinde ağrı, hassasiyetle karşımıza çıkar. Radyolojik bulgular tanı koydurucu değildir. Sıklıkla balpeteği görünümünde, yuvarlak ve sklerotik sınırları olan, litik bir lezyon şeklinde görülür.^[5] Mikroskopik incelemede, bol sayıda sinüzoidal, kanla dolu bölmeler karakteristiktir.^[3,6] Bu bölmeler arasındaki duvarlar

♦ ¹İstanbul Üniversitesi Cerrahpaşa Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı (¹Department of Otolaryngology, Cerrahpaşa Medicine Faculty of Istanbul University), İstanbul; ²Abant İzzet Baysal Üniversitesi Düzce Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı (²Department of Otolaryngology, Düzce Medicine Faculty of Abant İzzet Baysal University), Düzce; ³Şevket Yılmaz Devlet Hastanesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Kliniği (³Department of Otolaryngology, Şevket Yılmaz State Hospital), Bursa, all in Turkey.

♦ Dergiye geliş tarihi - 30 Kasım 2004 (Received - November 30, 2004). Yayın için kabul tarihi - 18 Nisan 2005 (Accepted for publication - April 18, 2005).

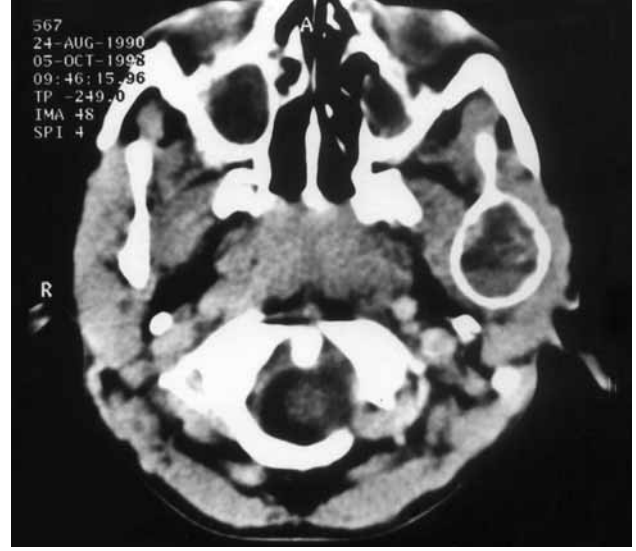
♦ İletişim adresi (Correspondence): Dr. Ender Güçlü. Abant İzzet Baysal Üniversitesi Düzce Tıp Fakültesi Kulak Burun Boğaz Hastalıkları Anabilim Dalı, 81620 Konuralp, Düzce, Turkey. Tel: +90 380 - 541 41 07 / 2312 Faks (Fax): +90 380 - 541 41 05 e-posta (e-mail): enderguclu@hotmail.com

fibröz dokudan oluşur. Ayrıca dev hücreler ve bol hemosiderin depolanması vardır.^[3]

Ayırıcı tanıda özellikle kemiklerin litik lezyonları göz önünde bulundurulmalıdır. Bunlar odontojenik kistler, travmatik kemik kisti, ameloblastom, dev hücreli granülom, dev hücreli tümör, primer ve metastatik tümörlerdir.^[1,3] Kesin tanı için histolojik inceleme gereklidir.

OLGU SUNUMU

Dokuz yaşında erkek hasta, Kasım 1998'de sol kulak önünde şişlik yakınmasıyla başvurdu. Şişliğin üç ay önce başladığını ve zamanla büyüme olduğunu ifade eden hastanın muayenesinde, sol preauriküler bölgede 3x3 cm boyutunda, düzgün sınırlı, ağrısız, fikse, fluktuasyon ve krepitasyon vermeyen, bir kitle saptandı. Bölgeye yönelik bilgisayarlı tomografi (BT) incelemesinde sol mandibula ramusu yerleşimli, mandibüler kondile uzanım gösteren ekspansif kitlenin, komşuluğundaki korteksi erode ettiği, içerisinde sıvı-sıvı seviyesi görüldüğü için kitlenin ilk planda AKK ile uyumlu olduğu düşünüldü (Şekil 1). Diğer fizik muayenelerinde herhangi bir patoloji saptanmayan hastanın, tüm kan değerleri de normaldi. Genel anestezi altında transoral yaklaşımla kitleye total küretaj uygulandı. Ameliyat sırasında kitlenin içinin septalı ve kanla dolu olduğu gözlemlendi. Yapılan frozen incelemesinde çizgili kas, hiyalinize bağ dokusu, kemik dokusu, hemorajik fibröz kapsül ve reaktif periosteal kemik dokusu görüldüğü bildirildi. Ameliyat süresince yaklaşık 300 ml kadar kanama oldu. Bütünüyle çıkartılan kitlenin histopatolojik incelemesi sonucu anevrizmal kemik kisti

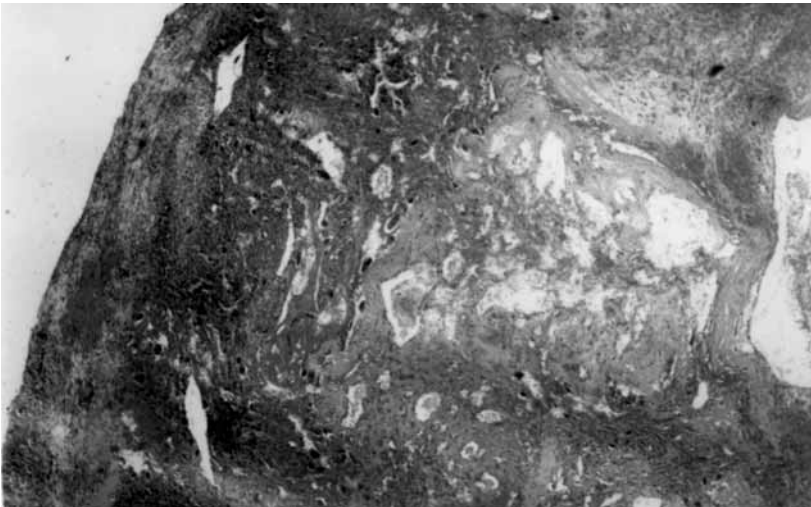


Şekil 1 - Hastanın ameliyat öncesi bilgisayarlı tomografi görüntüsünde sağ mandibüler ramusta büyük bir kemik kisti izleniyor.

ti tanısı konuldu. (Şekil 2). Ameliyat sonrası dönemde düzenli olarak yapılan kontrollerde yaklaşık dört yıldır lokal nüks veya komplikasyona rastlanmadı (Şekil 3).

TARTIŞMA

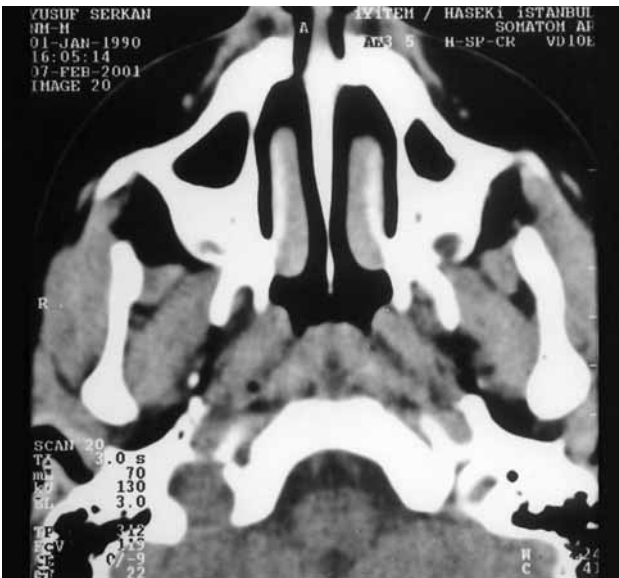
Anevrizmal kemik kistinin patogeneziyle ilgili birçok teori öne sürülmüştür. Bugün öne sürülen teorilerden travma sonrası reparasyon, değişen hemodinamizm (arteriovenöz fistül), veya diğer kemik lezyonlarının basısı sonucu geliştiği teorileri bütün olguları açıklamamaktadır.^[5] Birçok hastada travma öyküsü olduğundan, travmanın predispo-



Şekil 2 - Histopatolojik incelemede anevrizmal kemik kisti için tipik olan, eritrositler, yoğun kapiller damarlanma ve ince kemik lameller içeren kavernöz ve sinüzoidal boşluklar görülmüyor (H-E x 10).

zan bir faktör olabileceği düşünülmüş, fakat lezyonun gelişiminde bunun ne ölçüde önemli olduğu bilinmemektedir.^[6] Eveson ve ark.na^[7] göre olguların %50'sinde travma öyküsü vardır. Levy ve ark.^[8] unikameral kist, non-ossifying fibrom, osteoblastom, hemanjiyom histiosarkom ve hemanjiyomendoteliomun travma ve fraktürle ilişkili olduğunu, travma ve subperiosteal hematoma gelişiminin AKK gelişiminde ilk adımı oluşturduğunu öne sürmüşlerdir. Biesecker ve ark.^[11] AKK'nin arteriovenöz malformasyonlardan kaynaklandığını bildirmişlerdir. Yazarların çoğunluğu AKK'yi daha çok kemiklerin nonneoplastik, fibrodisplastik, reaktif lezyonları olarak düşünmektedir. Bu lezyon bazı yazarlara göre primer^[9] bazılarına göre ise sekonderdir.^[8] Pratikte de iki klinikopatolojik form halinde görülür. Birincisi primer lezyon, ikincisi kemiklerin başka hastalıklarıyla birlikte olan sekonder lezyondur.^[10,11] Olguların yaklaşık %30'unun sekonder olduğu düşünülmektedir. Bunlar sıklıkla uzun kemiklerde yerleşmişlerdir.^[10] Primer AKK'lerin %80'den fazlası uzun kemikler, yassı kemikler ve vertebraları tutar.^[12]

Bertoni ve ark.^[13] primer AKK'de makroskopik ve histomorfolojik görünümün önemini vurgulamıştır. Klasik form, değişken boylarda fibröz septayla ayrılmış kavernöz vasküler bölmeler, stromal dev hücreler ve incelmış kemik korteksi görünümündedir (Şekil 2). Bu en sık görülen lezyon şeklidir. Spektrumun



Şekil 3 - Hastanın ameliyattan iki yıl sonraki bilgisayarlı tomografi görüntüsü.

diğer ucunda solid varyantlar vardır ki (AKK'lerin %5'i) bunlarda ya vaskülarite belirgin değildir ya da sellüler fibröz doku ve dev hücreler arasında çok küçük alanlar olarak göze çarpar. Kavernöz ve solid tipler arasında her iki formu da içeren transizyonel veya mikst tip AKK'de vardır.^[5] Sekonder AKK genellikle kemiklerin fibröz displazi, dev hücreli tümör, kondroblastom, osteoblastom ve osteosarkom gibi hastalıklarıyla birlikte görülür.^[5,10,11] Bugün için sekonder AKK çenede sadece iyi huylu tümörlerle birlikte görülmektedir.^[5]

Klinik olarak genellikle kemik ekspansiyonu nedeniyle üzerindeki yumuşak dokuda şişme görülür. Lezyon kemik üzerinde sert, sıkı bir kitle olarak ele gelir. Elle muayenede ağrı ve hassasiyet çok sık görülmez. Krepitasyon da alınabilir.^[2,6] Bazen lezyonun dış yapısı üzerine etkisi olsa da dişlerin vitalitesini bozmadığı görülmüştür.^[3,6] Hastalar bazen değişik derecelerde trismus veya temporomandibüler eklem ağrısından şikayet eder. Bu da lezyonun temporomandibüler eklem kapsülü üzerine fiziksel baskısı ile ilişkilendirilmektedir.^[1]

Radyolojik olarak AKK uniloküler veya multiloküler multipl septası olan kistik, ekspansiyonla kortikal kemiği inceltmiş bir kitle şeklinde görülür. Çoğu zaman bu görüntü "sabun köpüğü" veya "balpeteği" görüntüsü olarak adlandırılır. Uzun kemiklerde olduğu gibi AKK'nin çenedeki radyografik görüntüsü tanı koydurucu değildir; sadece radyolojiyle ayırıcı tanıya gidilemez.^[3,4] İncelmış kortikal sınır konvansiyonel röntgene göre BT'de daha iyi görülür.^[14] Manyetik rezonans görüntüleme (MRG) tümörün kemik iliğine doğru büyümesini^[15] ve sıklıkla görülen ama lezyon için nonspesifik olan sıvı-sıvı seviyelerini daha iyi gösterir.^[14] Anjiyografiyle içi kontrast madde dolu kistik bölgeler içeren hipervaskülarize lezyon ve arteriovenöz şantlar görülür.^[16] Lezyonun demonstrasyonu için en iyi yöntemin MRG olduğu düşünülmektedir. "Radionucleotide imaging" yöntemi çene yerleşimli iki AKK olgusunda denenmiş ve daha üstün bir görüntüleme sağlamıştır.^[17] Günümüzde AKK tanısı için özel bir laboratuvar testi yoktur.

Ayırıcı tanıda dev hücreli granülom, juvenil fibromatozis, desmoplastik fibrom, fibröz histiositom, fibröz displazi, ossifying hematoma, nörofibrom, fibrosarkom, osteosarkom, nöroblastom, ameloblastik fibrom, odontojenik miksom ve cementifying fibrom göz önünde bulundurulmalıdır.^[5]

Şimdiye kadar bildirilmiş 84 olgu gözden geçirildiğinde %70.5'inin 20 yaş altında (ort. yaş 19.4; dağılım 4-59) ve cinsiyet dağılımının (erkek %49.3 kadın %50.7) birbirine yakın olduğu görülmektedir. Anevrizmal kemik kistlerinin %37.5'inin korpus, %28.1'inin ramus, %20.3'ünün açığı, %9.4'ünün simfizis ve %4.7'sinin de kondil yerleşimli olduğu görülmüştür. Bu yüzdeler Giddings ve ark.^[3] ile Trent ve Byl'in^[16] bildirdiği sonuçlarla benzerlik göstermektedir. Bildirilen toplam 67 girişim sonucunda 15 rekürrens (%22.3) görülmüştür. Olguların büyük kısmında (%60.2) küretaj uygulanmış, bunun yanında rezeksiyon (%28.6), hemimandibülektomi (%4.8), iki olguda perkütanöz embolizasyon (%3.2), bir olguda eksizyon (%1.6), bir olguda da (%1.6) radyoterapi uygulanmıştır. Kırk yedi küretaj girişimi sonucunda dokuz olguda (%19.1) rekürrens, 14 rezeksiyon girişimi sonucunda üç rekürrens (%21.4), üç hemimandibülektomi sonrası bir rekürrens ve radyasyon terapisi uygulanan bir olguda rekürrens bildirilmiştir. Küretajla birlikte kriyoterapi uygulanan bir hastada rekürrens bildirilmemiştir.

Anevrizmal kemik kistinin tedavisi cerrahi eksizyondur. Mandibüler AKK'lerinin tedavisinde, cerrahlar için mandibulanın fonksiyonel rekonstrüksiyonu, defekt sonrası kozmetik görüntü ve bazı olgularda fasiyal sinirin dallarının korunması gibi konular zorluk oluşturan noktalardır. Cerrahi eksizyon enükleasyon, küretaj veya konservatif rezeksiyon şeklinde olabilir. Günümüzde en sık kullanılan ve önerilen yöntem komple küretajdır. Anevrizmal kemik kistlerinin basit küretajı sonucunda yüksek rekürrens oranları (%20'den %60'a kadar) bildirilmiştir.^[18] Giddings ve ark.^[3] %20'lik rekürrens oranı bildirmişlerdir. Fakat bu konudaki genel görüş eğer lezyon tam olarak çıkartılırsa rekürrens oranının oldukça düşük olduğudur. Rekürrensler 20 yaş altı hastalarda daha sık görülmekle birlikte, cerrahi sonrası iki yılı geçmiş olgularda rekürrensin nadir olduğu belirtilmektedir.^[12] Blok rezeksiyon kozmetik görüntü ve ameliyat sonrası fonksiyon açısından pek tercih edilmez. Bu yöntem genellikle rekürrensler veya sekonder lezyonlarla birlikte olan olgular için düşünülmektedir. Primer radyoterapi günümüzde tercih edilen bir yöntem değildir. Radyoterapi kullanımıyla birlikte malign transformasyon potansiyelinin önemli derecede arttığı gösterilmiştir. Tillman ve ark.^[19] radyasyon tedavisi uyguladıkları 10 olgudan üçünde sarkom geliştiğini bildirmişlerdir. Canpolat ve ark.^[20] bir infantta fronto-orbital yerleşimli bir

AKK'yi, Sunar ve ark.^[21] frontal bölge yerleşimli diğer bir olguyu bildirmişlerdir. Sunar ve ark.^[21] rekürrensleri önlemek için geniş rezeksiyon tavsiye etmektedirler.

Kriyoterapi, basit küretajdan daha iyi kür sağladığı, daha kolay oluşu ve daha iyi fonksiyonel sonuç verdiği düşüncesiyle bazı yazarlarca önerilmektedir. Özellikle küretaj sonrası uygulandığında tek başına küretaja oranla daha az rekürrens görüldüğü bildirilmiştir.^[22]

Sonuç olarak, mandibula yerleşimli kitlelerin ayırıcı tanısında nadiren görülmekle birlikte AKK'de düşünülmesi ve tedavisinde total cerrahi küretaj seçilmelidir.

KAYNAKLAR

1. Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V. Aneurysmal bone cysts. A clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer* 1970;26:615-25.
2. Oliver LP. Aneurysmal bone cyst. Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1973;35:67-76.
3. Giddings NA, Kennedy TL, Knipe KL, Levine HL, Smith JD. Aneurysmal bone cyst of the mandible. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1989;115:865-70.
4. Newman L. Aneurysmal bone cyst-a lesion in the mandibular ramus. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1987; 25:74-8.
5. Kershnik M, Batsakis JG. Aneurysmal bone cysts of the jaws. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1994;103:164-5.
6. Gruskin SE, Dablin DC. Aneurysmal bone cysts of the jaws. *J Oral Surg* 1968;26:523-8.
7. Eveson JW, Moos KF, MacDonald DG. Aneurysmal bone cyst of the zygomatic arch. *Br J Oral Surg* 1978; 15:259-64.
8. Levy WM, Miller AS, Bonakdarpour A, Aegerter E. Aneurysmal bone cyst secondary to other osseous lesions. Report of 57 cases. *Am J Clin Pathol* 1975;63:1-8.
9. Telfer MR, Jones GM, Pell GM, Eveson JW. Primary bone cyst of the mandibular condyle. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1990;28:340-3.
10. Martinez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer* 1988;61:2291-304.
11. Halkias LE, Larsen PE, Allen CM, Steinberg MJ. Rapidly growing, expansile mass of the mandible in a 6-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 1998;56:866-71.
12. Vergel De Dios AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer* 1992;69:2921-31.
13. Bertoni F, Bacchini P, Capanna R, Ruggieri P, Biagini R, Ferruzzi A, et al. Solid variant of aneurysmal bone cyst. *Cancer* 1993;71:729-34.
14. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *AJR Am J Roentgenol* 1995;164:573-80.
15. Zimmer WD, Berquist TH, Sim FH, Wold LE, Pritchard

- DJ, Shives TC, et al. Magnetic resonance imaging of aneurysmal bone cyst. *Mayo Clin Proc* 1984;59:633-6.
16. Trent C, Byl FM. Aneurysmal bone cyst of the mandible. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993;102:917-24.
17. Okuyama T, Suzuki H, Umehara I, Kuwabara Y, Suzuki S, Takagi M. Diagnosis of aneurysmal bone cyst of the mandible. A report of two cases with emphasis on scintigraphic approaches. *Clin Nucl Med* 1985;10:786-90.
18. Matt BH. Aneurysmal bone cyst of the maxilla: case report and review of the literature. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 1993;25:217-26.
19. Tillman BP, Dahlin DC, Lipscomb PR, Stewart JR. Aneurysmal bone cyst: an analysis of ninety-five cases. *Mayo Clin Proc* 1968;43:478-95.
20. Canpolat A, Yılmaz A, Tanık C, Aydın Y. Fronto-orbital yerleşimli, fibröz displazi ile seyreden anevrizmal kemik kisti. *Türk Nöroşirürji Derg* 1999;9:81-5.
21. Sunar O, Devranoğlu İ, Kaytaz A, Korkut N, Ada M. Kemik lokalizasyonlu anevrizmal kemik kisti (A case of temporal bone aneurysmal bone cyst). *Türk Otolaringoloji Arşivi* 2000;38:56-9.
22. Saltzman EI, Jun MY. Aneurysmal bone cyst of the mandible: report of a case. *J Surg Oncol* 1981;17:385-94.