

## Idiopatska koštana šupljina mandibule

Goran Knežević, Ivica Krmpotić, Jakša Grgurević

Zavod za oralnu kirurgiju Stomatološkog fakulteta u Zagrebu

### Sažetak

Autori prikazuju četiri slučaja idiopatskih koštanih šupljina mandibule koje su u zadnjih pet godina registrirali u Klinici za kirurgiju lica, čeljusti i usta Medicinskog i Stomatološkog fakulteta u Zagrebu. U jednom slučaju postojale su i subjektivne smetnje, pa je to bilo razlogom da se izvrši operativni zahvat. Patohistološki nalaz potvrdio je nalaz sijalografije i nalaz u toku operacijskog zahvata, da se u šupljini nalazilo ektopično tkivo žlijezde slinovnice. U ostalim slučajevima lezije su bile asimptomatske te se povremeno rendgenološki kontroliraju, što je i stav većine autora koji su o tom problemu pisali. Dan je pregled svjetske literature od prvih opisa tih lezija i iznesena su značajnija stajališta pojedinih autora o tom problemu.

**Ključne riječi: mandibula, idiopatska šupljina**

Male, okrugle ili ovalne koštane šupljine, promjera od 0,5 do 3 cm, smještene u korpusu mandibule između regije premolara i angulusa, i uvijek ispod mandibularnog kanala, opisuju se u literaturi zadnjih četrdeset godina. Budući da ih bolesnici imaju bez ikakvih smetnji, to se one nađu najčešće slučajno, prilikom rutinskog rendgenskog pregleda čeljusti. Na rendgenskoj se snimci vide kao oštro ograničena okrugla ili ovalna prosvjetljenja. Katkada su prosvjetljenja smještena na samom donjem rubu mandibule i tada su polukružna, jer na tom mjestu nedostaje kortikalis donjeg ruba.

Prvu seriju od 34 slučaja takvih lezija opisao je Stafne<sup>1</sup> godine 1942. i nazvao ih statičkim koštanim šupljinama. Do 1958. Stafne<sup>2</sup> je registrirao 113 takvih promjena u mandibuli pa su to razlozi da se one u literaturi često nazivaju Stafneovim koštanim šupljinama.

Obzirom na nejasnu etiologiju do danas su se u literaturi za te lezije upotrebljavali slijedeći nazivi: statička koštana šupljina (Stafne<sup>1</sup>), solitarna koštana cista (Rushton<sup>3</sup> Whinery<sup>4</sup>), latentna koštana cista (Thoma<sup>5</sup>), mandibularni embrionalni defekt (Jacobs<sup>6</sup>), inkluzije žlijezda slinovnica u mandibuli (Seward<sup>7</sup>), kongenitalni defekt mandibule sa sadržajem žlijezda slinovnica (Choukas i Toto<sup>8</sup>), idiopatska

koštana šupljina mandibule (Bergenholtz i Persson<sup>9</sup>), razvojna udubina mandibule od lingvalne žlijezde slinovnice (Shear<sup>10</sup>), Stafneova idiopatska koštana šupljina (Killey i sur.<sup>11</sup>, lingvalna mandibularna koštana šupljina (Hansson<sup>2</sup>) itd.

O čemu se zapravo radi teško je reći, jer su podaci iz literature vrlo različiti, obzirom da su i patološki nalazi tkiva nađenog u takvim šupljinama također različiti. U jednom broju slučajeva šupljine su bile potpuno prazne (Jacobs<sup>6</sup>), drugi puta u njima je nađeno tkivo žlijezda slinovnica (Fordyce<sup>13</sup>), a ima slučajeva da je u šupljini nađen žlijezdani tumor – plemorfni adenom – (Simpson<sup>14</sup>). Blum<sup>15</sup> spominje slučajeve eozinofilnog granuloma koji su rendgenski slično izgledali, a sličan opis postoji i u našoj stomatološkoj literaturi (Zaklan-Kavić i Omrčen<sup>16</sup>). Opisani su također i slučajevi gdje su šupljine bile ispunjene displastičnim vezivom u kojem je bilo mnogo krvnih žila (Thoma<sup>5</sup>).

Većina autora smatra promjenu kongenitalnom i najčešće u njoj nalazi žlijezdano tkivo (Gorlin i Goldman<sup>17</sup>) međutim lezija je uvijek bila opisivana kod odraslih osoba iznad 20 godine života, a niti u jednom slučaju nisu postojali podaci da je tvorba postojala i u djetinjstvu i kasnije parzistirala ne mijenjajući veličinu i oblik. Naprotiv Hansson<sup>12</sup> prikazuje do tada jedini slučaj takve lezije u 11 godišnjeg djeteta, gdje je tvorba pronađena na kontrolnoj rendgenskoj snimci u toku ortodontskog liječenja, a na prije učinjenim snimkama je nije bilo, i time otvara sumnju da se radi o tvorbama koje su kongenitalne. Kay (cit. po Hanssonu)<sup>12</sup> smatra da promjene na tom dijelu mandibule nastaju zbog pulzacije arterije facijalis, koje su pojačane na mjestu njezina pritiska na korteks mandibule, pogotovo što ona prolazeći kroz duboku fasciju vrata zavija naglo oko donjeg ruba mandibule, pa ta promjena njezina toka pogoduje porastu tlaka na tom mjestu. Konstantna mikrotrauma tako dovodi do degenerativnog procesa u kosti i lokalizirane nekroze, što se pokazuje kao koštana šupljina.

Vrlo dobar prikaz literature objavljene o toj problematici od 1942. do 1974., a koja obuhvaća 250 do tada opisanih slučajeva, dali su Uemura i sur.<sup>18</sup> godine 1976. Forrest<sup>19</sup> je prikazao slučaj ektopičnog položaja žlijezdanog tkiva u mandibuli ali u području prednjih zuba, a Karmiol i Walsh<sup>20</sup> na osnovi rendgenskih ispitivanja 4963 bolesnika zaključuju da je jedan slučaj idiopatske koštane šupljine mandibule može očekivati na svakih 276 odraslih osoba, posebno muškaraca, što je, međutim, u disproporciji s ukupnim brojem do danas objavljenih slučajeva u svjetskoj literaturi.

Slučajevi arteriovenskih fistula u lateralnim dijelovima mandibule zasebne su patološke tvorbe i ne treba ih miješati s idiopatskim koštanim šupljinama, što se također povremeno čini. Treba ih također razlikovati od aneurizmatičkih koštanih cista koje spadaju u gigantocelularne lezije čeljusti, kao i od jednostavnih koštanih cista (traumatskih, hemoragičnih) koje se također mogu pojaviti u toj regiji, ali imaju sebi svojstvene kliničko morfološke i patohistološke karakteristike.

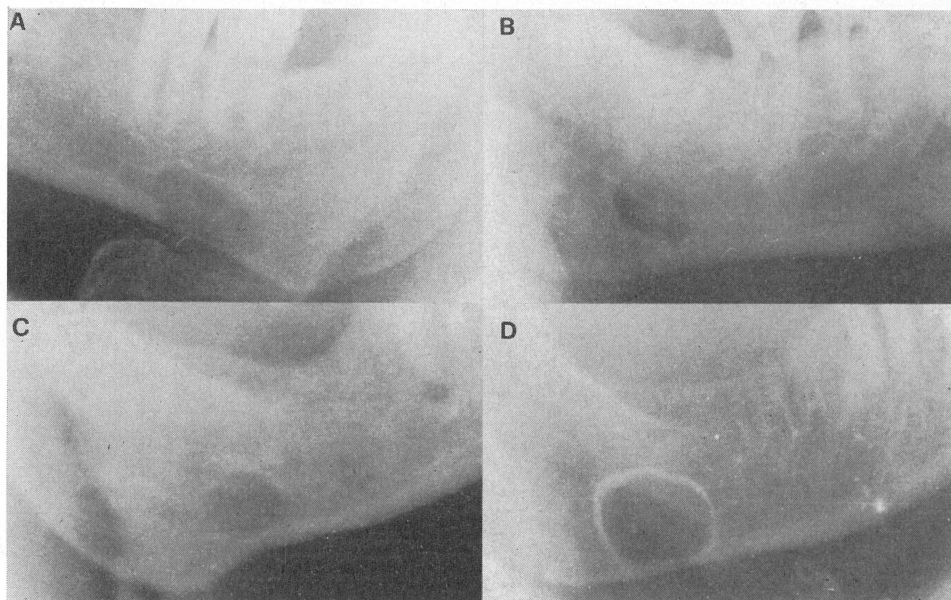
## Problem

Nema sumnje da je tvorba jedinstven klinički entitet, obzirom na njezin karakterističan izgled i tipičnu lokalizaciju u mandibul. Kako bolesnici obično nemaju nikakvih simptoma, a promjena u čeljusti se niti nakon dugogodišnjeg perzistira-

nja ne povećava, većina autora se slaže, da operativni zahvat nije indiciran. Sporadični slučajevi eozinofilnih granuloma, pleomorfnih adenoma i vezivne displazije s identičnom kliničkom i rendgenološkom slikom te opisani slučajevi patoloških fraktura čeljusti, (zbog toga što je koštana šupljina stvorila mjesto slabijeg otpora u tom dijelu čeljusti), razlog su da se operativni zahvat ipak povremeno radi. Da li operirati ili ne, bilo je temeljno pitanje u susretu s nekoliko slučajeva idiopatskih koštanih šupljina na koje smo naišli u zadnjih pet godina.

## PRIKAZ SLUČAJEVA

U ambulanti Klinike za kirurgiju lica, čeljusti i usta Medicinskog i Stomatološkog fakulteta u Zagrebu u zadnjih pet godina zabilježena su četiri slučaja s idiopatskom šupljinom mandibule (slika 1). Tri bolesnika su bila muškog i jedna ženskog spola u dobi od 36 do 71 godine. Dva slučaja upućena su u ovu Kliniku zbog liječenja periapeksnog upalnog procesa na donjim zubima a jedan zbog prijeloma donjeg kutnjaka. Na postraničnom rendgenogramu mandibule, kao usputni nalaz otkrivena je šupljina u angularnom dijelu mandibule. Nakon toga su učinjene i rendgenske snimke suprotne strane čeljusti ali niti u jednom slučaju nije nađena simetrična pojava šupljina. Idiopatske šupljine čeljusti bile su u troje pacijenata locirane na lijevoj strani mandibule a u jednom slučaju desno. Ni jedan od pacijenata nije imao smetnje koje bi se mogle povezati sa šupljinama u čeljusti i oni se redoovito rendgenološki kontroliraju. Jedini ženski pacijent upućen je na obradu s dijagnozom: *cysta mandibulae residualis*.

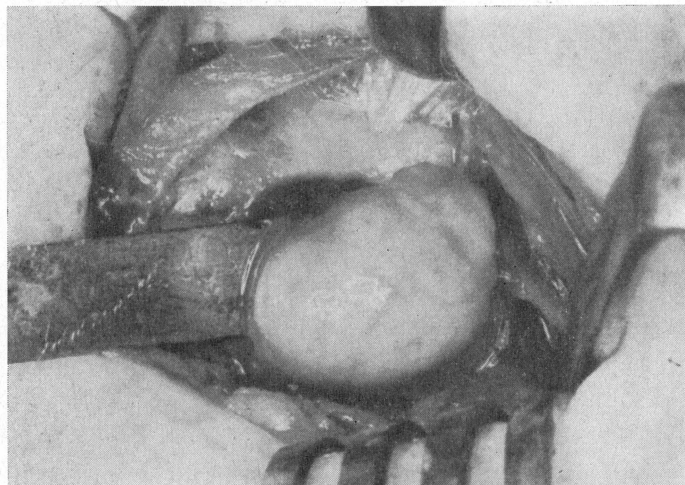


Slika 1. Rendgenogrami četiri slučaja idiopatskih koštanih šupljina mandibule

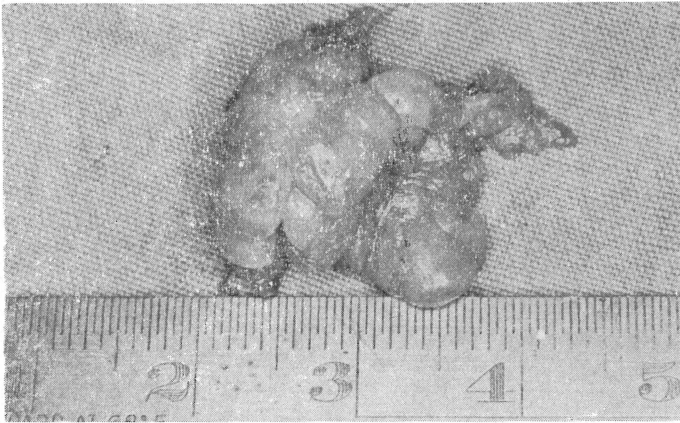
Iz anamneze: pacijentica K. M. stara 71 godinu ima dugogodišnje vertebralne smetnje koje je fizijatrijski liječila. Pred šest mjeseci joj je rendgenološki snimana vratna kralježnica i tada je prvi put utvrđena šupljina s lijeve strane donje čeljusti. Zbog povremenih spontanih bolova u tom dijelu čeljusti upućena je u ovu Kliniku s navedenom dijagnozom. Pregledom je utvrđeno da pacijentica nosi gornju totalnu protezu i ima djelomično bezubu donju čeljust. Na palpaciju se javlja bol s lijeve, unutarnje strane mandibule ispod milohioidnog mišića te s vanjske strane ispod masetera uz sam donji rub čeljusti. Zbog izrazito velike šupljine ispod mandibularnog kanala i povremenih bolova preporučeno je operativni za-



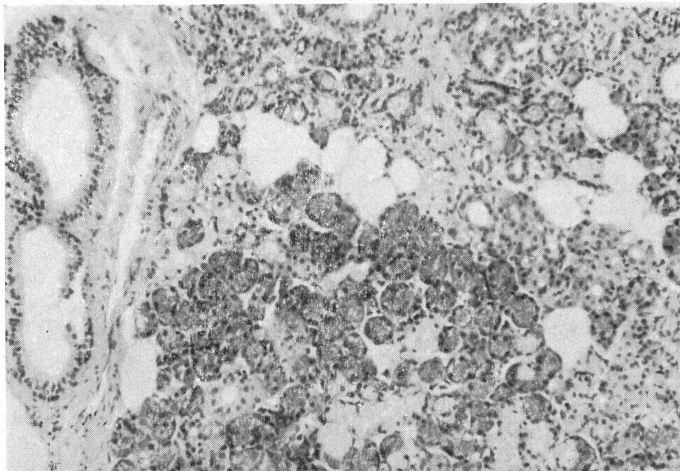
Slika 2. Sijalogram sadržaja idiopatske koštane šupljine mandibule slučaja sa slike 1 D.



Slika 3. Intraoperacioni nalaz opisanog slučaja.



Slika 4. Tkivo odstranjeno iz koštane šupljine mandibule



Slika 5. Patohistološka slika opisanog slučaja; povećanje 200 X

hvat. Prije operacije učinjena je sijalografija lijeve submandibularne žlijezde i na rendgenogramima se vidi da kontrastno sredstvo (Lipiodol) ulazi u šupljinu čeljusti (slika 2). U općoj anesteziji se izvrši operativni zahvat. Ekstraoralnim pristupom prilaže se donji rub mandibule i ispod hvatišta masetera naiđe se na transparentnu, blago izbočenu kost veličine  $1,5 \times 1,5$  cm. Nakon što se odstrani tanka koštana lamela uđe se u koštanu šupljinu koja se proteže punom debljinom čeljusti i široko otvara ispod milohioidnog mišića. Šupljina je ispunjena tkivom koje klinički izgleda kao žljezdano. Tragova eptela ili drugih tkiva u šupljini nije nađeno. Nakon izguravanja tkiva iz šupljine vid se da je ono izdanak submandibularne žlijezde koji je urastao u kost (slika 3). Tkivo koje se nalazilo u koštanoj šup-

ljini se izreže i pošalje na patohistološku pretragu. Patohistološka dijagnoza potvrđuje kliničku tj. da se radi o normalnom tkivu žlijezde slinovnice (slika 4 i 5).

## DISKUSIJA

Da li su opisane koštane šupljine u donjoj čeljusti posljedica kongenitalnih uklještenja gornjeg reznja submandibularne žlijezde (Coukas i Toto<sup>6</sup>), embrionalnih prebacaja te iste žlijezde (Jacobs<sup>6</sup>) poremetnje razvoja (Fordyce<sup>3</sup>, Seward<sup>7</sup>, Stafne<sup>1</sup>), trajnog mehaničkog podražaja iz okoline (Thoma<sup>5</sup>, Shear<sup>10</sup>, Choukas i Toto<sup>8</sup>) ili traume (Rushton<sup>3</sup>) nije do danas sa sigurnošću dokazano. U naših bolesnika nismo mogli utvrditi uzrok nastanka koštanih šupljina, ali nas to kao kliničare nije posebno ni opterećivalo. Jedno je sasvim sigurno, pojava nije odontogenog porijekla i nije cistična (Boerger i sur.<sup>21</sup>). U troje bolesnika nije bilo znakova promjene anatomske oblika, bolova, promjene senzibiliteta zuba ili mekih tkiva, niti bilo kojeg drugog simptoma. Sve četiri promjene slučajno su otkrivene.

Ne možemo govoriti o incidenciji te pojave jer ogromna većina bolesnika koji prolaze kroz našu ambulantu ne treba opsežniju rendgenološku obradu od ortoradijalne intraoralne snimke, na kojoj se zbog svoje lokalizacije lezija najčešće ne vidi. U našem izvještaju radi se o tri muškarca i jednoj ženi u starosnoj dobi od 36 do 71 godinu, što se slaže s podacima iz literature.

Svi registrirani slučajevi bili su tipične lokalizacije i izgleda, ali ne smatramo da klinički i rendgenološki nalaz daje garanciju za patohistološki supstrat koji će se naći u kosti, a taj, kao što smo uvodno naveli može biti različit. Jasno je da se na temelju tih pokazatelja ne može isključiti i razvoj tumora u koštanoj šupljini, što se u literaturi spominje. Do sada nije opisano maligno tkivo u idiopatskoj koštanoj šupljini mandibule.

Sijalografija submandibularne žlijezde kombinirana s rendgenogramima u tri projekcije (A-P, lateralna i zagrizna) korisna je ako je sadržaj žlijezdano tkivo.

## ZAKLJUČAK

Naziv idiopatska koštana šupljina mandibule prikladan je za opisani klinički entitet s obzirom da je porijeklo tvorbe još uvijek nejasno a sadržaj šupljine u kosti nepredvidiv.

Kako je klinički tok tih tvorbi miran, bez znakova povećanja šupljine, nije nužno forsirati da se šupljina operativno prikaže i sadržaj odstrani. Dovoljno je rendgenološki redovito pratiti bolesnika i upoznati ga s naravi lezije.

Operativni zahvat indiciramo u slučajevima većih koštanih šupljina i u svim slučajevima kad postoje subjektivne smetnje (bol, zatezanje, parestezije) ili opasnost od patološkog prijeloma donje čeljusti. Samo patohistološka analiza sadržaja koštane šupljine određuje njezinu pravu narav, a jer je operacijski zahvat relativno jednostavan treba mu pristupiti uvijek kada za to postoji razlog, bilo zbog toga što se objektivno ne može odrediti karakter tvorbe, zbog toga što postoji mogućnost da se radi o nekom drugom patološkom stanju, ili bolesnik traži da se zbog njegove vlastite sigurnosti utvrdi pravi karakter lezije.

## Literatura

1. STAFNE, E. C.: Bone cavities situated near the angle of the mandible, *J. Amer. Dent. Ass.*, 29:1969—1972, 1942.
2. STAFNE, E. C.: Oral roentgenographic diagnosis, sec. ed. W. B. Saunders Co. Philadelphia and London 1963 (pp. 43—48).
3. RUSHTON, M. A.: Solitary bone cyst in mandible, *Br. Dent. J.*, 81:37—49, 1946.
4. WHINERY, J. G.: Progressive bone cavities of the mandible — a review of the so-called traumatic bone cyst and a report of three cases, *Oral Surg.*, 8: 903—916, 1955.
5. THOMA, K. H.: Case report of a so-called latent bone cyst, *Oral Surg.*, 8:963—966, 1955.
6. JACOBS, M. H.: The traumatic bone cyst, *Oral Surg.*, 8:940—949, 1955.
7. SEWARD G. R.: Salivary gland inclusions in the mandible, *Br. Dent. J.*, 108:321—325, 1960.
8. CHOUKAS, N. C., TOTO, P. D.: Etiology of static bone defects of the mandible, *J. Oral Surg.*, 18:16—20, 1960.
9. BERGENHOLTZ, A., PERSSON, G.: Idiopathic bone cavities, *Oral Surg.*, 16: 703—712, 1963.
10. LHEAR, M.: Cysts of the oral regions, John Wright & sons Ltd. Bristol, 1976 (pp. 118—119).
11. KILLEY, H. C., KAY, L. W., SEWARD, G. R.: Benign cysts lesions of the jaws their diagnosis and treatment, third ed., Churchill Livingstone, Edinburgh London and New York, 1977.
12. HANSSON, L. G.: Development of a lingual mandibular bone cavity in an 11-year-old boy, *Oral Surg.*, 49:376—378, 1980.
13. FORDYCE, G. L.: Probable nature of so-called latent haemorrhagic cysts of the mandible, *Br. Dent. J.*, 101:40—42, 1956.
14. SIMPSON, W.: A Stafne's mandibular defect containing a pleomorphic adenoma: Report of case, *J. Oral Surg.*, 23: 553—555, 1965.
15. BLUM, T.: An additional report on traumatic bone cysts — Also a discussion of Dr. John G. Whinery's paper »Progressive bone cavities of the mandible, *Oral Surg.*, 8:917—933, 1955.
16. ZAKLAN-KAVIĆ, D., OMRČEN, N.: Eozinofilni granulom mandibule, *Acta stom. croat.*, 7:64—67, 1972/73.
17. GORLIN, R. J., GOLDMAN, H. M.: Thoma's oral pathology, sixth ed. C. V. Mosby Co., St. Louis 1970.
18. UEMURA, S., FUJISHITA, M., FUCHIHATA, H.: Radiographic interpretation of so-called developmental defect of mandible *Oral Surg.*, 41:120—128, 1976.
19. FORREST W. R.: Ectopic Salivary gland, *Oral Surg.*, 37:653—654, 1974.
20. KARMIOL, M., WALSH, R. F.: Incidence of satis bone defect of the mandible, *Oral Surg.*, 26:225—228, 1968.
21. BOERGER, W. G., WAITE, D. E., CARROLL, G. W.: Idiopathic bone cavities of the mandible: a review of the literature and report of case, *J. Oral Surg.*, 30:506—509, 1972.

## Summary

## IDIOPATHIC BONE CAVITY OF THE LOWER JAW

Presentation is made of four cases of idiopathic bone cavity of the mandible seen during the past five years at the Clinic of Dentofacial Surgery of the School of Medicine and Dental Medicine in Zagreb. In one case surgical intervention was performed because of subjective complaints. The pathohistologic findings confirmed the sialographic and intraoperative findings, which had revealed that the cavity contained ectopic salivary gland tissue. Since the lesions in the remaining three cases were asymptomatic, the patients are periodically subjected to X-ray examinations as proposed by most publications on this problem. By way of conclusion, a short historical review of these lesions is presented and the attitudes of some authors who have written about this problem are evaluated.

**Key words:** mandibule, idiopathic cavity