

Le myxome odontogène de la mandibule : à propos d'un cas et revue de la littérature

Mots clés :

Myxome
Tumeurs bénignes
Tumeurs odontogéniques



Odontogenic myxoma of the mandible: case report and review of the literature.

Keywords :

Myxoma
Benign tumours
Odontogenic tumours

Saloua DGHUGHY*, Wafaâ ELWADY**, Salma BENAZZOU***, Bouchra TALEB****

* Résidente au service d'odontologie chirurgicale du centre de consultations et de traitements dentaires de Rabat.

** Professeur d'enseignement supérieur et chef du service d'odontologie chirurgicale du centre de consultations et de traitements dentaires de Rabat.

*** Spécialiste au service de chirurgie maxillo-faciale de l'hôpital des spécialités de Rabat.

**** Professeur agrégé au service d'odontologie chirurgicale du centre de consultations et de traitements dentaires de Rabat.

r
é
s
u
m
é

Le myxome odontogène est une tumeur bénigne, rare et localement invasive. Elle se développe à partir du mésenchyme odontogène presque exclusivement au niveau des régions dentées. La lésion est souvent indolore et de croissance lente. Les signes cliniques et radiologiques ne sont pas caractéristiques et peuvent faire penser à d'autres tumeurs, bénignes ou malignes, rendant le diagnostic différentiel difficile. Ce néoplasme peut envahir les tissus adjacents et récidiver après chirurgie. C'est pourquoi une résection complète et un suivi régulier s'imposent. Nous présentons un cas de myxome odontogène de la mandibule traité par énucléation chez une femme marocaine de 24 ans. L'origine, les manifestations cliniques ainsi que les possibilités thérapeutiques sont discutées.

a
b
s
t
r
a
c
t

Odontogenic myxoma is a rare, benign, locally invasive tumour. It arises from the mesenchymal portion of the odontogenic apparatus and is almost exclusively seen in tooth-bearing areas. The lesion is often painless and slow growing. Clinical and radiographic features are not diagnostically characteristic and overlap with those of other benign and malignant neoplasms rendering the differential diagnosis difficult. This neoplasm can invade adjacent tissues and recurs after surgical resection. Therefore, en bloc resection and regular follow up are required. In this article, an odontogenic myxoma of the mandible occurring in a 24 year-old Moroccan woman treated by enucleation is presented. The origin, clinical manifestations and treatment options are discussed and the relevant literature reviewed.



Le myxome odontogène (MO) des maxillaires a été initialement décrit par Thoma et Goldman en 1947. Ce néoplasme est rare, bénin, localement invasif et ne métastase pas (Chiodo et coll., 1997).

Dans la classification histologique internationale des tumeurs odontogéniques, le MO est défini comme une tumeur odontogène bénigne d'origine mésenchymateuse constituée de cellules rondes et cubiques, baignant dans un abondant stroma mucoïde (Noffke et coll., 2007).

Rapport de cas

Une femme marocaine de 24 ans présentait une tuméfaction, grossissant progressivement sur le côté gauche de la mandibule. Ses antécédents médicaux étaient sans particularité. Elle a d'abord remarqué la masse présente depuis 8 mois et s'est plainte de douleurs et de gêne à la mastication.

L'examen clinique a montré une asymétrie faciale (Fig. 1). Un adénopathie mobile de la région sub-mandibulaire gauche a été trouvé à la palpation.

L'examen intrabuccal a révélé un gonflement s'étendant de la première prémolaire inférieure jusqu'à la branche montante. La deuxième prémolaire et les deux premières molaires étaient absentes (extraites par un praticien supposant qu'elles étaient la cause de ce gonflement). La masse remplissait le vestibule et provoquait un déplacement lingual de la troisième molaire. La muqueuse de recouvrement était ulcérée et localement inflammatoire probablement du fait de l'impact de la molaire maxillaire (Fig. 2a et 2b). À la palpation, la masse était ferme et légèrement douloureuse.

Odontogenic myxoma (OM) of the jaw was first described by Thoma and Goldman in 1947. It is a rare, benign, locally invasive, and nonmetastasizing neoplasm of the jaw bones (Chiodo et al., 1997). In the international histological classification of odontogenic tumours, OM is defined as a benign odontogenic tumour of mesenchymal origin that consists of rounded and angular cells lying in abundant mucoïd stroma (Noffke et al., 2007)

Case report

A 24-year-old Moroccan woman had a gradually enlarging mass on the left side of the mandible. Her medical history was unremarkable. She first noticed the mass since 8 months ago and complained of pain and discomfort in chewing.

Clinical examination showed a facial asymmetry (Fig. 1). A non fixed lymph node on the left submandibular region was noted at palpation.

Intraoral examination revealed a swelling extending from the first lower premolar to the mandibular ramus. The second premolar and the two first molars were absent (removed by a dental practitioner thinking that they were the cause of the swelling). The mass filled the vestibule and caused displacement of the third molar to the lingual side of the crest. The superficial tissue covering showed ulcer and local inflammation, most likely due to the maxillary molar impaction (Fig. 2a and 2b). At palpation, the mass was firm and slightly painful.



Fig. 1 : Asymétrie faciale.
Facial asymmetry.





Fig. 2a et 2b : Ulcération et inflammation de la muqueuse de recouvrement probablement due à l'impact des molaires antagonistes.

Superficial tissue covering showing ulcer and local inflammation most likely due to the maxillary molar's impact.

La radiographie panoramique a mis en évidence une radioclarité multiloculaire relativement bien circonscrite s'étendant de la racine de la deuxième prémolaire inférieure gauche jusqu'à la branche montante. La troisième molaire semblait être incluse dans la lésion. Le bord basilaire restait intact (**Fig. 3**).

La tomographie digitalisée a montré l'étendue et les limites de la lésion. Des coupes axiales ont clairement montré la masse hypo-atténuée causant la destruction des deux corticales (**Fig. 4**).

La patiente a été transférée au service de chirurgie maxillo-faciale pour l'énucléation et le curetage du tissu osseux environnant. L'approche chirurgicale de la lésion a été intrabuccale. La racine de la deuxième prémolaire inférieure gauche a été extraite.

Panoramic radiograph disclosed a relatively well circumscribed multilocular radiolucency extending from the root of the left lower second premolar to the mandibular ramus. The third molar seemed to be embedded in the lesion. The basilar border remained intact (**Fig. 3**).

Computed tomography showed the lesion's extent and margins. Axial sections (bone window) showed evident hypo attenuated mass causing the destruction of both cortical plates (**Fig. 4**).

The patient was referred to the maxillofacial surgery department for an enucleation of the lesion followed by curettage of the surrounding bony tissue. The surgical approach was intraoral. The root of the left lower second premolar was lastly removed.

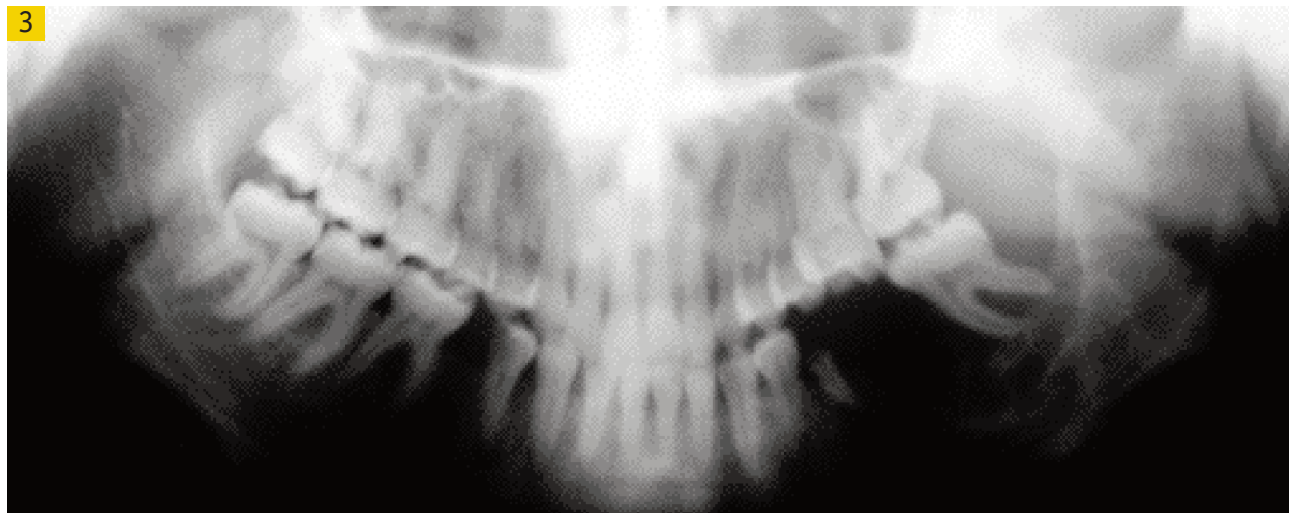


Fig. 3 : Radioclarité multiloculaire s'étendant de la racine de deuxième prémolaire gauche à la branche montante de la mandibule.

Multilocular radiolucency extending from the root of the left lower second premolar to the mandibular ramus.





Fig. 4 : Coupe axiale (en fenêtre osseuse) montrant une masse hypodense entraînant la destruction des deux corticales.

Axial sections (bone window) showing evident hypo attenuated mass causing the destruction of both cortical plates.

L'examen macroscopique de la pièce opératoire a montré une lésion ferme d'une dizaine de centimètres. La troisième molaire occupait la masse tumorale (Fig. 5). L'examen microscopique des coupes colorées à l'hématoxyline-éosine a montré une lésion multiloculaire en extension caractérisée par des cellules stellaires s'implantant dans un fond richement mucoïde conduisant au diagnostic de myxome odontogène (Fig. 6).

Discussion

Le MO est une tumeur bénigne rare se développant à partir du tissu conjonctif odontogénique (ou à partir du mésenchyme odontogénique). Elle se situe presque exclusivement dans des secteurs dentés (Asami et coll., 2002) et représente 3 % à 6 % de toutes les tumeurs odontogéniques (Fenton et coll., 2003). L'origine du MO semble être l'ectomésenchyme odontogène de la dent en cours de développement ou des cellules mésenchymateuses non différenciées du desmodonte. L'origine odontogène du néoplasme est confirmée par sa ressemblance histologique avec le réticulum étoilé d'une dent en cours de développement, par sa présence exclusive à proximité des secteurs dentés des maxillaires par l'association occasionnelle avec des dents perdues ou non évoluées, et rarement par la présence d'un épithélium odontogène inactif ou par sa localisation à une autre partie du corps (Noffke et coll., 2007 ; Simon et coll., 2004).

Macroscopic examination of the specimen showed a firm lesion of a 10-cm maximum dimension. The third molar was fitted in the tumoral mass (Fig. 5). Microscopic examination of hematoxylin-eosin stained sections showed an expanding multilocular lesion characterized by stellate cells embedded in a richly mucoïd background leading to the diagnosis of odontogenic myxoma (Fig. 6).

Discussion

OM is an uncommon benign tumour arising from the mesenchymal portion of the odontogenic apparatus. It is almost exclusively seen in tooth-bearing areas (Asami et al., 2002) and represents 3 % to 6 % of all odontogenic tumours (Fenton et al., 2003).

The origin of OM is believed to be odontogenic ectomesenchyme of a developing tooth or undifferentiated mesenchymal cells in the periodontal ligament. The odontogenic origin of the neoplasm is supported by its histological similarity to the stellate reticulum of a developing tooth, its exclusive occurrence in close proximity to tooth-bearing parts of the jaws, its occasional association with missing or unerupted teeth, a presence of inactive odontogenic epithelium in a minority of cases, and its rare occurrence in other parts of the skeleton (Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004).



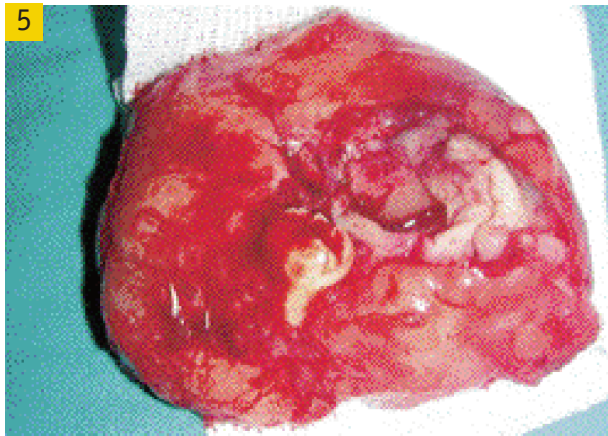


Fig. 5 : Aspect macroscopique montrant une masse ferme englobant la troisième molaire.

Macroscopic examination of the specimen showing a firm lesion containing the third molar.

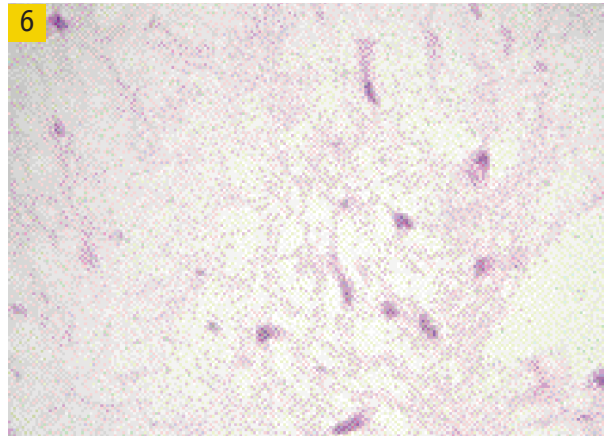


Fig. 6 : Coupes histologiques colorées à l'hématéine éosine (grossissement X 400) montrant une prolifération tumorale faite de cellules étoilées sur un fond myxoïde.

Microscopic examination of hematoxylin-eosin stained sections (magnification X 400) showing an expanding multilocular lesion characterized by stellate cells embedded in a richly mucoïd background.

En Afrique, le MO est la deuxième tumeur odontogénique la plus commune après l'améloblastome avec des fréquences relatives entre 1 et 19 % (Noffke et coll., 2007 ; Simon et coll., 2004).

Cela confirme les découvertes de Regezi et coll. (1978) rapportant que les MO représentent environ 3 % de toutes les tumeurs et kystes des maxillaires confondus et qu'ils sont moins fréquents que les améloblastomes (11 %).

En Asie, Europe et Amérique, des fréquences relatives entre 0,5 et 17,7 % ont été rapportées (Noffke et coll., 2007 ; Simon et coll., 2004).

Les femmes sont plus souvent atteintes que les hommes (Noffke et coll., 2007 ; Simon et coll., 2004 ; Kimura et coll., 2001). Cependant, d'autres auteurs n'ont pas observé de différence liée au sexe (Chiodo et coll., 1997 ; Aquilino et coll., 2006 ; Theodorou et coll., 2007).

Cette lésion est normalement rencontrée dans les deuxièmes et troisièmes décades de la vie, rare chez les enfants et chez les adultes âgés de plus de 50 ans (Aquilino et coll., 2006 ; Noffke et coll., 2007 ; Simon et coll., 2004 ; Theodorou et coll., 2007 ; Chiodo et coll., 1997). Cependant dans les études effectuées par Simon et coll. (2004), le patient le plus jeune est âgé de 3 mois et le plus vieux a 64 ans.

Fenton et coll. (2003) ont rapporté un cas de myxome chez un enfant de 17 mois.

La plupart des lésions mandibulaires ont été trouvées à la partie postérieure, à l'angle et à la branche montante (Chiodo et coll., 1997 ; Noffke et coll., 2007). Les atteintes de la partie antérieure et des deux côtés de la mandibule sont rares. Au maxillaire, les processus alvéolaire et zygomatique sont atteints (Chiodo et coll.,

In Africa, OM is seen to be the second most common odontogenic tumour after ameloblastoma occurring with relative frequencies between 1 and 19 % (Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004).

This supports the findings of Regezi et al. (1978) reporting that odontogenic myxomas comprise about 3 % of all tumours and cysts of the jaws and are less frequent than ameloblastomas (11 %).

In Asia, Europe and America, relative frequencies between 0.5 and 17.7 % have been reported (Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004).

Females are more often affected than males (Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004 ; Kimura et al., 2001). However, other authors did not observe any gender predilection (Chiodo et al., 1997 ; Aquilino et al., 2006 ; Theodorou et al., 2007).

This lesion usually occurs during the second and third decades of life, being rare in children and adults older than 50 years old (Aquilino et al.; 2006 ; Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004 ; Theodorou et al., 2007 ; Chiodo et al., 1997). Simon et al. (2004) reported, however, the age of the youngest and the oldest patients being 3 months old and 64 years old respectively.

Fenton et al. (2003) also reported a case of myxoma in a 17-month-old child.

Most mandibular lesions arise from the posterior body, angle, and ramus (Chiodo et al., 1997 ; Noffke et al., 2007). Anterior or bilateral mandibular involvement is rare. Maxillary involvement includes both the posterior alveolar and zygomatic processes (Chiodo et al., 1997). In both jaws, the posterior





1997). Pour les deux maxillaires, les secteurs postérieurs sont les plus souvent atteints (Simon et coll., 2004). D'autres localisations de MO maxillaires ont été rarement enregistrées (Noffke et coll., 2007). Halfpenny et coll. (2000) ont décrit un cas de myxome situé au niveau du condyle mandibulaire apparaissant comme un dysfonctionnement de l'articulation temporo-mandibulaire.

Sur 5000 tumeurs osseuses affectant le squelette, étudiées par McClure et Dahlin (1977), seulement 3 cas de myxomes extra-buccaux ont été identifiés.

Quelques auteurs ont rapporté que la mandibule est plus fréquemment atteinte que le maxillaire et d'autres ont rapporté une distribution égale entre le maxillaire et la mandibule (Simon et coll., 2004 ; Chiodo et coll., 1997). Toutes les lésions maxillaires sont unilatérales, confirmant l'hypothèse que les myxomes odontogène s'étendent rarement au delà de la ligne médiane (Simon et coll., 2004).

Paradoxalement, Adekeye et coll. (1984) ont trouvé que 36 % des myxomes maxillaires s'étendaient vers le côté opposé au niveau de la région antérieure.

Le MO est normalement une tumeur présentant un développement lent, englobant fréquemment une dent incluse, et s'étendant dans les maxillaires (Kimura et coll., 2001). Les patients présentent le plus souvent un gonflement asymptomatique du maxillaire et dans de nombreux cas, cette tumeur est une découverte fortuite lors d'un examen dentaire de routine (Chiodo et coll., 1997). Dans le cas présenté ici, la déformation du visage est le motif de la consultation.

Bien que certains auteurs aient rapporté des symptômes comme la douleur et la paresthésie, le MO a le potentiel pour atteindre une taille considérable sans signe, ni symptôme apparents (Noffke et coll., 2007).

Le MO présente une croissance infiltrante avec la destruction de l'os spongieux et le développement vers l'os cortical (Aquilino et coll., 2006). Cela peut avoir comme conséquence la perte de dents, la résorption des racines, une malocclusion, des problèmes d'adaptation des prothèses et une difformité faciale (Chiodo et coll., 1997). Le déplacement dentaire est relativement commun. Il a été rapporté que les dents atteintes pouvaient être mobiles, mais sont en général vivantes (Noffke et coll., 2007).

La lésion est capable de pénétrer et d'envahir les tissus adjacents. (Aquilino et coll., 2006).

Le délai moyen entre les premiers symptômes et le traitement varie entre 1 et 5 ans, reflétant ainsi sa croissance lente (Chiodo et coll., 1997).

À l'examen macroscopique, la tumeur apparaît comme une masse lisse, luisante, gélatineuse et lobulée (Chiodo et coll., 1997 ; Bayi et coll., 2006). Sa consistance varie de mou à dure selon le caractère fibreux du contenu. Sa

region is most often affected (Simon et al., 2004). OMs in other sites of the jaws have rarely been recorded (Noffke et al., 2007). Halfpenny et al. (2000) described a case of myxoma involving the mandibular condyle appearing as temporomandibular joint dysfunction.

In 5000 bone tumours affecting the skeleton studied by McClure and Dahlin (1977), only 3 cases of extra-gnathic myxomas were identified.

Some authors report that the mandible is more frequently involved than the maxilla while others have reported an equal distribution in both jaws (Simon et al., 2004 ; Chiodo et al., 1997).

All maxillary lesions were found unilateral only corresponding to current knowledge that odontogenic myxoma rarely crosses the midline (Simon et al., 2004).

In contrast, Adekeye et al. (1984) found 36 % of myxomas of the jaws crossing the midline anteriorly.

OM is usually a slow-growing tumour, frequently containing an embedded tooth and gradually expanding the jaw (Kimura et al., 2001). Patients often have an asymptomatic swelling of the maxilla. In many cases the tumour is an incidental finding on routine dental examination (Chiodo et al., 1997). In our case, facial deformity and functional discomfort brought the patient to seek medical care.

Although some authors report symptoms like pain and paresthesia, OM has the potential to attain a considerable size without noticeable signs and symptoms (Noffke et al., 2007).

OM shows an infiltrative growth pattern with destruction of the medullar bone and expansion of the cortical bone (Aquilino et al., 2006). This results in loosening of teeth, root resorption, malocclusion, ill-fitting dentures, and facial deformity (Chiodo et al., 1997). Displacement of teeth is relatively common. It was reported that involved teeth could be mobile but are usually vital (Noffke et al., 2007).

The lesion is able of perforating and invading the adjacent soft tissues and cortical bone (Aquilino et al., 2006). The average time between the first symptoms and the treatment varies between 1 and 5 years, reflecting its slow-growing nature (Chiodo et al., 1997).

On macroscopic examination, the tumour appears as a smooth, glistening, gelatinous, lobulated mass (Chiodo et al., 1997 ; Bayi et al., 2006). Its consistency varies from soft to firm depending on the





couleur varie du gris-blanc ou blanc laiteux à jaune ou ambre. La plupart des auteurs rapportent que la tumeur n'est pas encapsulée, mais quelques-uns ont décrit la présence d'une pseudocapsule (Chiodo et coll., 1997). Radiologiquement, le myxome odontogène se présente typiquement comme une lésion multiloculée, expansive, radioclaire avec des bords sclérotiques nets (Chiodo et coll., 1997). Un aspect uniloculaire est parfois rapporté (Kumura et coll., 2001). La radioclarité peut avoir des bords plus ou moins nets (Simon et coll., 2004; Theodorou et coll., 2007).

Il a été rapporté que la taille des lésions est en corrélation avec leur localité. Des lésions multiloculaires peuvent atteindre des tailles supérieures à 40 millimètres, excédant ainsi des lésions multiloculaires dans leurs plus grandes dimensions (Noffke et coll., 2007 ; Fenton et coll., 2003). Le déplacement dentaire par la tumeur avec l'aspect radiologique en doigt de gants s'insinuant entre les racines dentaires peut être observé. Une résorption radiculaire est rarement présente. Cependant, Simon et coll. (2004) ont noté cette résorption radiculaire dans la moitié des cas étudiés, ce qui est une fréquence relativement haute comparée aux autres études.

La présence de septum est une caractéristique classique du MO, expliquant les aspects radiologiques en « bulle de savon », « nid d'abeille » et « raquette de tennis ». Le dernier est une rareté et est presque pathognomonique du MO (MacDonald-Jankowski et al., 2004). Un aspect trabéculaire radié (ou radiaire) peut être retrouvé (Theodorou et coll., 2007).

Certains MO, cependant, ont montré un aspect mixte radiopaque-radioclaire, qui a été attribué à la présence d'un foyer de calcification. Il a été suggéré que cet aspect peut être expliqué par de l'os résiduel et non par une nouvelle formation d'os (Noffke et coll., 2007).

Dans des lésions mandibulaires, le cortex est normalement sclérotique et intact. Cependant, au maxillaire, l'atteinte antrale peut se produire (Chiodo et coll., 1997 ; Bayi et coll., 2006).

La tomographie numérisée montre l'étendue de la lésion avec une conservation ou une destruction des corticales. La résonance magnétique (IRM) a un rôle dans l'évaluation radiologique de ces tumeurs (Chiodo et coll., 1997). Cette technique semble être supérieure à la tomographie numérisée dans l'évaluation des limites et extension au sein des tissus mous, mais égale ou légèrement inférieure à la tomographie numérisée dans la détection de la lésion et l'évaluation de l'atteinte osseuse (Chiodo et coll., 1997).

Le diagnostic différentiel des MO multiloculaires doit se faire avec l'améloblastome, l'hémangiome intraosseux, le kyste osseux anévrysmal, le granulome central à cel-

fibrous tissue content. Its colour varies from gray-white or milk-white to yellow or amber. Most authors state that the tumour is not encapsulated, but a few have described a presence of pseudocapsule (Chiodo et al., 1997).

Radiologically, odontogenic myxoma typically presents as a multiloculated, expanding, radiolucent area with well-defined sclerotic margins (Chiodo et al., 1997) but a unilocular appearance is sometimes reported (Kumura et al., 2001). The radiolucency of the lesion may present clearly defined or poorly defined diffuse borders (Simon et al., 2004 ; Theodorou et al., 2007).

It was reported that the size of the lesions correlated with their locality. Multilocular lesions can reach the sizes of larger than 40 mm, thereby exceeding unilocular lesions in the greatest dimension (Noffke et al., 2007 ; Fenton et al., 2003). Displacement of teeth by the tumour with scalloping between roots may occur. Root resorption rarely occurs. However, Simon et al. (2004) reported root resorption in approximately half of the cases, presenting a relatively high frequency compared to other studies.

The presence of septa is a generally common feature of OM, which produce the radiographical appearances of « soap bubble », « honeycomb » and « tennis racket » patterns. The last one is rare and almost pathognomonic of OM (MacDonald-Jankowski et al., 2004). A radiating trabecular pattern may also be present (Theodorou et al., 2007).

Some OMs, however, showed a mixed radiopaque-radiolucent appearance, which was ascribed to the presence of foci of calcification. It was suggested that this appearance may be due to residual bone and not to new bone formation (Noffke et al., 2007).

In mandibular lesions, the cortex is usually sclerotic and intact. However, in the maxilla, antral involvement may occur (Chiodo et al., 1997 ; Bayi et al., 2006).

Computed tomography shows the extent of the lesion with cortical plate preservation or destruction. MRI has a role in the radiologic evaluation of these tumours (Chiodo et al., 1997). It appears to be superior to computed tomography in evaluating the margins and soft tissue extent of the lesion but equal or slightly inferior to computed tomography in detecting the lesion and evaluating bone involvement (Chiodo et al., 1997).

The differential diagnosis of multilocular OMs should include ameloblastoma, intraosseous hemangioma, aneurysmal bone cyst, central giant cell gra-





lules géantes, le chérubisme, la tumeur métastatique, le kyste odontogénique glandulaire et le keratocyste odontogénique, particulièrement de type multiloculaire (Noffke et coll., 2007; Simon et coll., 2004).

Dans les cas de lésions uniloculaires, des kystes simples doivent être inclus (Simon et coll., 2004).

Les granulomes centraux à cellules géantes affectent le secteur antérieur des maxillaires plus fréquemment que la partie postérieure. Les lésions à cellules géantes de l'hyperparathyroïdie peuvent être éliminées si la biologie du sérum est normale. Le chérubisme est une condition héréditaire caractérisée par le gonflement bilatéral du visage pendant la première enfance. Les kystes osseux anévrysmaux, généralement douloureux, présentent un contact mou à la palpation, contrairement à la plupart des MO. De plus, ils se trouvent rarement dans la région peri-buccale. Enfin, les hémangiomes intra-osseux peuvent être exclus après une aspiration négative (Noffke et coll., 2007; Wood et Goaz, 1997).

Le MO diffère de l'améloblastome par sa localisation. L'améloblastome est généralement trouvé dans le secteur des troisièmes molaires, en particulier à la mandibule. Le MO est régulièrement trouvé tout au long des maxillaires (Marx et Stern, 2003).

Chez les patients âgés, la malignité possible ne devrait pas être exclue car des aspects radiologiques ressemblant à un ostéosarcome ont été rapportés, particulièrement quand le patient a un passé carcinologique (Noffke et coll., 2007; Wood et Goaz, 1997).

Une biopsie est toujours nécessaire afin d'établir un diagnostic précis.

Dans notre cas, l'âge du patient (24 ans), le site de la lésion (le secteur molaire), les aspects cliniques (la lésion était ferme à la palpation et la pression n'a pas provoqué de saignement), la présentation radiologique (radioclarité multiloculaire) ont conduit à trois diagnostics possibles : le kératocyste odontogène, l'améloblastome et le myxome odontogène.

L'examen microscopique a confirmé le diagnostic d'un myxome odontogène.

Il semble important de souligner que la résonance magnétique (IRM) dynamique peut distinguer les améloblastomes des myxomes odontogènes et peut être un outil utile pour le diagnostic du myxome comme l'ont montré Asami et coll. (2002 ; 2005). L'agent de contraste Gd-DTPA n'entre pas dans la partie kystique des améloblastomes, mais a rapidement pénétré la substance tumorale. Au contraire, la molécule a pénétré dans la partie centrale des myxomes odontogènes, les secteurs semblables au kyste, comme la partie périphérique.

Au microscope, ces lésions sont caractérisées par des cellules stellaires et fusiformes incorporées dans un fond intercellulaire mucoïde. Beaucoup de ces cellules ont de

nodules, cherubism, metastatic tumour, glandular odontogenic cyst, and keratocystic odontogenic tumour, especially the multilocular type (Noffke et al., 2007 ; Simon et al., 2004).

In cases of unilocular lesions, simple cysts must be included (Simon et al., 2004).

Giant cell granulomas affect the anterior region of the jaws more frequently than the posterior part. Giant cell lesions of hyperparathyroidism can be eliminated if the serum chemistry is normal. Cherubism is a hereditary condition characterized by bilateral facial swelling during early childhood. Aneurysmal bone cysts present with pain and tenderness as opposed to most OM, and also seldom occur in the perioral region. Finally, intrabony hemangiomas can be ruled out after a non-productive aspiration (Noffke et al., 2007 ; Wood and Goaz, 1997).

OM differs from ameloblastoma in site preference. While ameloblastoma is much more commonly seen in the third molar areas, particularly in the mandible, OM is evenly distributed throughout the jaws (Marx and Stern, 2003).

In older patients, the possibility of a malignancy should not be ruled out because radiographic features resembling osteosarcoma have been reported, especially when the patient has a history of a primary malignancy elsewhere in the body (Noffke et al., 2007 ; Wood and Goaz, 1997). However, a biopsy is always necessary to ascertain an accurate diagnosis.

In our case, patient's age (24 years old), lesion's site (molar area), clinical features (the lesion was firm at palpation and no bleeding under pressure) and radiographic presentation (multilocular radiolucency) led to three possible diagnoses: keratocystic odontogenic tumour, ameloblastoma and odontogenic myxoma.

Microscopic examination confirmed the diagnosis of odontogenic myxoma.

It seems important to point out that dynamic MRI can distinguish ameloblastomas from odontogenic myxomas and may be a useful tool for diagnosis of myxoma as demonstrated by Asami et al. (2002 ; 2005). Gd-DTPA (a contrast agent to improve the resolution of MRI image) does not enter the cystic part of ameloblastoma, but rapidly entered into the tumour substance. In contrast, this molecule entered the central portion of odontogenic myxoma, which appeared to be cyst-like areas, as well as the peripheral portion.

Microscopically, these lesions are characterized by stellate and spindle-shaped cells embedded in a mucoïd intercellular background. Many of these cells





longues prolongements fibrillaires qui ont tendance à s'enchevêtrer (Chiodo et coll., 1997; Simon et coll., 2004; Bayi et coll., 2006). Une faible quantité de collagène est trouvée. Les cas avec une quantité plus importante de collagène peuvent être dénommés myxofibrome (Martinez-Mata et coll., 2007; Max et Stern, 2003).

Occasionnellement, de petits îlots d'épithélium odontogène peuvent être trouvés dispersés partout dans la tumeur (Aquilino et coll., 2006; Bayi et coll., 2006; Marx et Stern, 2003).

A la périphérie, le tissu myxomateux pénètre dans les espaces trabéculaires, produisant des îlots d'os résiduel. Cet aspect explique la difficulté d'éliminer la lésion d'une manière conservatrice (Sapp et coll., 2004).

La chirurgie radicale, l'excision, ou l'énucléation suivie par le curetage du tissu osseux environnant ont tous été préconisés comme des options de traitement (Lo Muzio et coll., 1996). Les MO sont localement envahissants et ont une tendance à la récurrence s'ils sont réséqués incomplètement. Le taux moyen de récurrence est de 25 % (Lo Muzio et coll., 1996 ; Chiodo et coll., 1997; Aquilino et coll., 2006). La tumeur n'est pas encapsulée et ses marges cliniques et radiographiques ne correspondent parfois pas aux marges réelles. Son tissu myxomateux infiltre le tissu osseux environnant sans destruction immédiate (Lo Muzio et coll., 1996 ; Chiodo et coll., 1997).

L'index de prolifération cellulaire du MO a été trouvé bas et il a été donc suggéré que le caractère invasif, et la tendance à la récurrence du MO résulteraient de la dissémination du tissu tumoral dans le champ opératoire due à la consistance gélatineuse et aux bords mal définis (Noffke et coll., 2007). Donc, l'ablation chirurgicale complète par le traitement conservateur étant difficile, plusieurs auteurs préconisent une cautérisation électrique ou chimique (Chiodo et coll., 1997) après la chirurgie.

Face aux taux élevés de récurrences locales, la résection en bloc est devenue la règle dans la gestion chirurgicale de ces tumeurs. Des approches intrabuccales peuvent être adaptées dans de petites lésions. De plus grandes lésions sont traditionnellement abordées par voie extrabuccale. Cette approche, cependant, laisse le patient avec une cicatrice faciale externe (Chiodo, et coll., 1997).

En général, le traitement dépend de :

- la taille tumorale ; le curetage semble être adéquat pour la gestion primaire des lésions en réservant la résection en bloc pour la gestion de lésions étendues récidivantes (Lo Muzio et coll., 1996 ; Simon et coll., 2004)
- le site tumoral ; Slootweg et Wittkamp (1986) suggèrent qu'il est plus facile d'enlever tout le tissu tumoral visible à la mandibule par un curetage minu-

have long fibrillar processes that tend to intermesh (Chiodo et al., 1997 ; Simon et al., 2004 ; Bayi et al., 2006). Small amount of collagen is found. Those cases with higher collagen may be denominated as myxofibroma (Martinez-Mata et al., 2007 ; Max and Stern, 2003).

Occasionally, small islands of odontogenic epithelial tissue can be found scattered throughout the tumour (Aquilino et al., 2006 ; Bayi et al., 2006 ; Marx and Stern, 2003).

On the periphery, myxomatous tissue penetrates trabecular spaces, producing islands of residual bone. This feature accounts for the difficulty to conservatively remove the lesion (Sapp et al., 2004).

Radical surgery, excision, or enucleation followed by curettage of surrounding bony tissue have all been advocated as treatment options (Lo Muzio et al., 1996). OMs are locally invasive and have a propensity to recur if incompletely resected and a reported average recurrence rate of 25 % (Lo Muzio et al., 1996 ; Chiodo et al., 1997 ; Aquilino et al., 2006). The tumour is not encapsulated, and its apparent clinical and radiographic margins may not correspond with the true margins. Its myxomatous tissue infiltrates the surrounding bony tissue without its immediate destruction (Lo Muzio et al., 1996 ; Chiodo et al., 1997).

The cell-proliferating index of OM was found to be low, and it was therefore suggested that the invasive nature and high tendency of OM to recur was more likely to be the result of tumour spillage in the operating field due to the gelatinous consistency and the poorly defined borders (Noffke et al., 2007). Therefore, complete surgical removal by conservative treatment can be difficult and many authors use electrical or chemical cautery following to surgery (Chiodo et al., 1997).

In view of the high rates of local recurrence, en bloc resection has become the mainstay in surgical management of these tumours. Intraoral approaches may be appropriate in small lesions. Larger lesions have traditionally been approached extraorally. This approach, however, leaves the patient with an external facial scar (Chiodo, et al., 1997).

In general, the treatment depends on:

- size of the tumour; Curettage seems to be adequate for primary management of the lesions reserving block resection for management of extensive lesions or recurrence (Lo Muzio et al., 1996 ; Simon et al., 2004).
- site of the tumor; Slootweg and Wittkamp (1986) suggest that it is easier to enucleate, in the mandible, all visible tumour tissue by thorough curettage.





tieux. Cependant, à leur avis, au maxillaire, le voisinage de structures vitales et le risque plus grand de diffusion écarte l'approche conservatrice en raison du risque plus grand de récidives. Des approches plus radicales sont préconisées dans ces cas (Halfpenny et coll., 2000).

Pour Marx et Stern (2003), le traitement curatif (le terme utilisé pour indiquer la chirurgie radicale) d'un myxome odontogène est achevé par la résection de 1 à 1,5 cm d'os sain. Le traitement conservateur peut être réalisée avec l'énucléation et le curetage chez des individus qui préfèrent ce traitement, ou pour ceux dont le risque anesthésique est trop important pour subir une chirurgie curative.

La radiothérapie dans la gestion de cette tumeur n'a pas été préconisée (Chiodo, et coll., 1997).

Le suivi à long terme semblerait être nécessaire. Le patient devrait être suivi étroitement pendant au moins les 2 premières années, car c'est la période pendant laquelle le néoplasme est le plus apte à se reproduire, bien que parfois la récurrence puisse apparaître beaucoup plus tard (30 ans après la chirurgie originale) (Lo Muzio et coll., 1996; Halfpenny et coll., 2000). Notre patient subit toujours un suivi régulier depuis 6 mois et ne montre aucun signe de récurrence.

Pour certains auteurs, la malignité ne peut pas être exclue dans le cas de néoplasmes avec des bords indistincts et des résorptions radiculaires (Noffke et coll., 2007). Pour d'autres, le MO ne subit jamais la transformation maligne et ne provoque pas de métastase (Simon et coll., 2004).

However, in their opinion, in the maxilla, the vicinity of vital structures and the greater risk of infiltrative spread being undetected macroscopically because of the more complex anatomy preclude the more conservative approach because of the greater risk of recurrence. A more radical approach in these cases is thus advocated (Halfpenny et al., 2000).

For Marx and Stern (2003), curative treatment (term used to indicate radical surgery) of an odontogenic myxoma is accomplished by resection with 1 to 1.5 cm bony margins and one uninvolved anatomic barrier margin. Palliation or conservative treatment may be achieved with enucleation and curettage for those individuals who prefer and request palliation over curative resection, or for those whose anesthetic risk is too great to undergo curative surgery.

The use of radiotherapy in the management of this tumor has not been advocated (Chiodo, et al., 1997). Indefinite follow-up would appear to be necessary. The patient should be followed closely for at least the first 2 years, because this is the period during which the neoplasm is most likely to recur, although sometimes recurrence may appear much later (30 years after original surgery). (Lo Muzio et al., 1996 ; Halfpenny et al., 2000). Our patient still undergoes a regular follow-up since 6 months, and no signs of recurrence have been noticed.

For some authors, malignancy could not be excluded in the case of neoplasms with indistinct borders and root resorption (Noffke et al., 2007). For others, OM never undergoes malignant transformation or gives rise to metastasis (Simon et al., 2004).

Conclusion

Le myxome odontogène est une tumeur rare, bénigne et localement envahissante. Sa répartition en fonction de l'âge est très large. Des aspects cliniques et la présentation radiographique ne sont pas caractéristiques et rendent l'interprétation différentielle difficile. Une biopsie est obligatoire pour l'établissement d'un diagnostic final. Cela exige une équipe pluridisciplinaire : pathologiste oral, radiologiste et clinicien.

Odontogenic myxoma is a rare, benign, locally invasive tumor. Its age distribution is very broad. Its clinical features and radiographic presentation are not characteristic rendering thus the differential interpretation difficult. A biopsy is therefore mandatory in establishing a final diagnosis, requiring a multidisciplinary interaction among oral pathologist, radiologist, and clinician.

Traduction : Ngampis SIX

**Demande de tirés-à-part :
Saloua DGHOUGHY - BP 527 - Meknès principal - MAROC.**



- ADEKEYE E.O., AVERY B.S., EDWARDS M.B., WILLIAMS H.K.
Advanced central myxoma of the jaws in Nigeria. Clinical features, treatment and pathogenesis. *Int J Oral Surg* 1984;**13**:177-181.
- AQUILINO R.N., TUJI F.M., EID N.L.M., MOLINA O.F., JOO H.Y., NETO F.H.
Odontogenic myxoma in the maxilla : a case report and characteristics on CT and MR. *Oral Oncol* 2006;**42**:133-136.
- ASAUMI J.I., HISATOMI M., YANAGI Y., MATSUZAKI H., CHOI Y.S., KAWAI N., KONOUCI H., KISHI K.
Assessment of ameloblastomas using MRI and dynamic contrast-enhanced MRI. *Eur J Radiol* 2005;**56**:25-30.
- ASAUMI J.I., MATSUZAKI H., HISATOMI M., KONOUCI H., SHIGEHARA H., KISHI K.
Application of dynamic MRI to differentiating odontogenic myxomas from ameloblastomas. *Eur J Radiol* 2002;**43**:37-41.
- BAYI EL H, EL HARTI K, CHBICHEB S, EL WADY W, OUJILAL A, KZADRI M.
Myxome odontogène des maxillaires. *Rev Stomat Chir Maxillofac* 2006;**107**:389-392.
- CHIODO A.A., STRUMAS N., GILBERT R.W, BIRT D.B.
Management of odontogenic myxoma of the maxilla. *Otolaryng Head Neck Surg* 1997;**117**:73-76.
- FENTON S., SLOOTWEG P.J., DUNNEBIER E.A., MOURITS M.P.
Odontogenic Myxoma in a 17-Month-Old Child : a case report. *J Oral Maxillo Surg* 2003;**61**:734-736.
- HALFPENNY W., VEREY A., BARDSLEY V.
Myxoma of the mandibular condyle. A case report and review of the literature. *Oral Surg* 2000;**90**:348-353.
- KIMURA A., HASEGAWA H., SATOU K., KITAMURA Y.
Odontogenic myxoma showing active epithelial islands with microcystic features. *J Oral Maxillo Surg* 2001;**59**:1226-1228.
- LO MUZIO L., NOCINI P.F, FAVIA G., PROCACCINI M., MIGNOGNA M.D.
Odontogenic myxoma of the jaws. A clinical, radiologic, immunohistochemical, and ultrastructural study. *Oral Surg* 1996;**82**:426-433.
- MC CLURE D.K., DAHLIN D.C.
Myxoma of bone. Report of three cases. *Mayo Clin Proc* 1977;**52**:249-253.
- MARX R.E., STERN D.
Oral and maxillofacial pathology : a rationale for diagnosis and treatment 1st ed. Illinois: Quintes Pub 2003.
- MACDONALD-JANKOWSKI D.S., YEUNG R.W.K., LI T., LEE K.M.
Computed tomography of odontogenic myxoma. *Clinic Radiol* 2004;**59**:281-287.
- MARTINEZ-MATA G., MOSQUEDA-TAYLOR A., CARLOS-BREGNI R., PAES DE ALMEIDA O., CONTRERAS-VIDAURRE E., VARGAS P.A., CANO-VALDÉZ A.M., DOMINGUEZ-MALAGO H.
Odontogenic myxoma: Clinico-pathological, immunohistochemical and ultrastructural findings of a multicentric series. *Oral Oncol*; 2007;**44**:601-607.
- NOFFKE C.E.E, RAUBENHEIMER E.J., CHABIKULI N.J., BOUCKAERT M.M.R.
Odontogenic myxoma : review of the literature and report of 30 cases from South Africa. *Oral Surg* 2007;**104**:101-109.
- WOOD NK, GOAZ PW.
Differential diagnosis of oral and maxillofacial lesions. Fifth edition. St. Louis, Missouri: Editions Mosby, 1997.
- REGEZI J.A., KERR D.A, COURTNEY R.M.
Odontogenic tumours : analysis of 706 cases *J Oral Surg*;1978;**36**:771-778.
- SAPP J.P., EVERSOLE L.R., WYSOCKI G.P.
Contemporary oral and maxillofacial pathology 2nd edition. St. Louis, Missouri : Editions Mosby, 2004.
- SIMON E.N.M, MERKX M.A.W, VUHAHULA E., NGASSAPA D., STOELINGA P J.W.
Odontogenic myxoma: a clinicopathological study of 33 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*; 2004; **33**:333-337.
- SLOOTWEG P.J, WITKAMPF R.M.
Myxoma of the jaws. An analysis of 15 cases. *J Maxillofac Surg*;1986;**14**:46-52.
- THEODOROU S.J, THEODOROU D.J, SARTORIS D.J.
Imaging characteristics of neoplasms and other lesions of the jawbones Part 1. Odontogenic tumors and tumorlike lesions. *Clin Imag* 2007;**31**:114-119.
- THOMA K.H., GOLDMAN H.M.
Central myxoma of the jaw. *Amer J Oral Surg Ortho* 1947;**33**:532.