

Κροσσωτή χειρουργική κύστη: Αναφορά περίπτωσης μιας σπάνιας οντότητας

Μαρία ΦΥΡΓΙΟΛΑ¹, Βιολέττα ΛΙΑΝΟΥ², Κωνσταντίνος ΚΑΤΟΥΜΑΣ³, Ευαγγελία ΠΙΠΕΡΗ⁴, Ιωάννης ΔΗΜΟΠΟΥΛΟΣ⁵

Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, Γενικό Νοσοκομείο Αθηνών «Γ. Γεννηματάς»
(Διευθυντής: Ι. Δημόπουλος)

Surgical ciliated cyst: A case report

Maria FYRGIOLA, Violetta LIANOY, Konstantinos KATOUMAS, Evangelia PIPERI, Ioannis DIMOPOULOS

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, "G. Gennimatas" General Hospital of Athens (Head : Dr. I. Dimopoulos)

Ενδιαφέρουσα περίπτωση
Case report

ΠΕΡΙΛΗΨΗ: Η κροσσωτή χειρουργική κύστη ή αλλιώς μετεχειρητική κύστη της άνω γνάθου αποτελεί μια σπάνια βλάβη που παρουσιάζεται κυρίως στην άνω γνάθο σε ασθενείς που έχουν υποβληθεί σε μια χειρουργική επέμβαση στην περιοχή κατά το παρελθόν. Ενίοτε μπορεί να εμφανιστεί και στην κάτω γνάθο. Ο χρόνος εμφάνισης αυτής της όψιμης μετεχειρητικής επιπλοκής ποικίλει.

Στην εργασία μας παρουσιάζεται μια σπάνια περίπτωση κροσσωτής χειρουργικής κύστης, σε άντρα 77 ετών, ο οποίος προ 19 ετών, είχε υποβληθεί σε χειρουργική επέμβαση ανάταξης και οστεοσύνθεσης πολλαπλών καταγμάτων μέσου τριτημορίου του προσώπου.

ΛΕΞΕΙΣ ΚΛΕΙΔΙΑ: Κροσσωτή χειρουργική κύστη, μετεχειρητική κύστη άνω γνάθου, Caldwell-Luc, άνω γνάθος, κάτω γνάθος

SUMMARY: The surgical ciliated or postoperative maxillary cyst is a rare entity, that appears mainly in the maxilla of patients, who have previously undergone a surgical procedure in the region. The cyst may be infrequently located in the mandible. The time of development of this late postoperative complication varies.

We present the case of a 77-year-old male, who developed a surgical ciliated cyst, at the site of a previous operation for reduction and fixation of multiple mid-face fractures, 19 years ago.

KEY WORDS: Surgical ciliated cyst, postoperative maxillary cyst, Caldwell-Luc, maxilla, mandible

¹MD, DDS, Ειδικευμένη ΣΓΠΧ, ΣΓΠΧ Κλινική, ΓΝ Αθηνών «Γ. Γεννηματάς»
²MD, DDS, MSc, PhD, ΣΓΠΧ, Επιμελήτρια Α', ΣΓΠΧ Κλινική, ΓΝ Αθηνών «Γ. Γεννηματάς»
³MD, DDS, MSc, PhD, Ειδικευόμενος ΣΓΠΧ, ΣΓΠΧ Κλινική, ΓΝ Αθηνών «Γ. Γεννηματάς»
⁴DDS, MSc, PhD, Επίκ. Καθηγήτρια Στοματολογίας, Οδοντιατρική Σχολή ΕΚΠΑ
⁵DDS, ΣΓΠΧ, Διευθυντής ΣΓΠΧ Κλινικής, ΓΝ Αθηνών «Γ. Γεννηματάς»

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η κροσσωτή χειρουργική ή αλλιώς μετεγχειρητική κύστη της άνω γνάθου περιγράφηκε για πρώτη φορά από τον Kubo το 1927 (Kubo, 1927). Στην Ιαπωνική βιβλιογραφία επικράτησε ο όρος 'μετεγχειρητική κύστη της άνω γνάθου' (Sugar και συν. 1990), ενώ οι Gregory και Shafer εισήγαγαν τον όρο 'χειρουργική κροσσωτή κύστη' (Gregory και Shafer, 1958).

Παρουσιάζεται σε ασθενείς, που έχουν υποβληθεί σε χειρουργική επέμβαση στην άνω γνάθο κατά το παρελθόν, ενώ σπανιότερα μπορεί να παρουσιαστεί στην κάτω γνάθο μετά από ορθογναθικές επεμβάσεις. (Seifi και συν. 2016).

Εμφανίζεται κυρίως στον Ασιατικό πληθυσμό, ενώ στους Καυκάσιους είναι σπάνια (Niederquell και συν. 2016). Στη μέχρι τώρα ελληνική βιβλιογραφία έχουν αναφερθεί άλλα δύο περιστατικά (Christopoulos και Patrikiou 1991, Georgopoulou και συν. 2006).

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Άντρας ασθενής 77 ετών προσήλθε στα εξωτερικά ιατρεία της Κλινικής Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής, το Νοέμβριο του 2016, απιώμενος ανώδυνη διόγκωση αντίστοιχα με την οπίσθια νωδή περιοχή της άνω γνάθου δεξιά, που παρουσιάστηκε από ενός έτους και είχε αυξηθεί σε διαστάσεις τους τελευταίους δύο μήνες. Ο ασθενής δεν έφερε μερική οδοντοστοιχία στην περιοχή. Συμπτώματα στοματοκολπικής επικοινωνίας δεν υπήρχαν και η δοκιμασία Valsalva ήταν αρνητική. Από το ατομικό αναμνηστικό ανέφερε αρτηριακή υπέρταση, για την οποία λάμβανε αγωγή. Στο ιστορικό του ανέφερε επίσης τροχαίο ατύχημα προ 19 ετών, κατά το οποίο υπέστη πολλαπλά κατάγματα μέσου τριτημορίου, τύπου Le Fort II αριστερά και III δεξιά. Για τα παραπάνω υπεβλήθη σε χειρουργική επέμβαση ανάταξης και οστεοσύνθεσης με πλάκες και βίδες τιτανίου. Ειδικότερα στην περιοχή του δεξιού ζυγωματοκογχικού συμπλέγματος, λόγω συντριπτικών καταγμάτων, έγινε ανασύσταση του εδάφους του δεξιού οφθαλμικού κόγχου, του πρόσθιου τοιχώματος του ιγμορείου και μέρους του δεξιού ζυγωματικού τόξου με λαγόνια αυτομοσχεύματα.

Στον ασθενή ζητήθηκε αρχικά πανοραμική ακτινογραφία (Εικ. 1) και μετέπειτα αξονική τομογραφία σπλαγχνικού κρανίου (Εικ. 2), η οποία ανέδειξε την παρουσία αλλοίωσης στην ανατομική περιοχή του δεξιού ιγμορείου άντρου, με ομαλά και σαφή όρια, πυκνότητας μαλακού ιστού, διαστάσεων 3x3 εκ.. Η αλλοίωση δεν παρουσίαζε σκιαγραφική ενίσχυση, μετά την ενδοφλέβια χορήγηση φαρμάκου, ενώ επεκτείνονταν προς τα κάτω ερχόμενη σε επαφή με τη σκληρά υπερώα, ως το επίπεδο των πτερυγοειδών αποφύσεων.

Στον ασθενή πραγματοποιήθηκε βιοψία της βλάβης υπό τοπική αναισθησία, κατά την οποία ελήφθη ιστοτεμάχιο βλεννογόνου και τμήμα τοιχώματος της βλάβης. Κατά τη

INTRODUCTION

Surgical ciliated cyst, also known as postoperative maxillary cyst, was first described by Kubo in 1927 (Kubo, 1927). The term "postoperative maxillary cyst" prevailed in the Japanese literature (Sugar et al. 1990), whereas Gregory and Shafer introduced the term "surgical ciliated cyst" (Gregory and Shafer, 1958).

These cysts develop in patients who have undergone maxillary surgery in the past; in rare cases, they can also occur in the mandible after orthognathic surgery (Seifi et al. 2016).

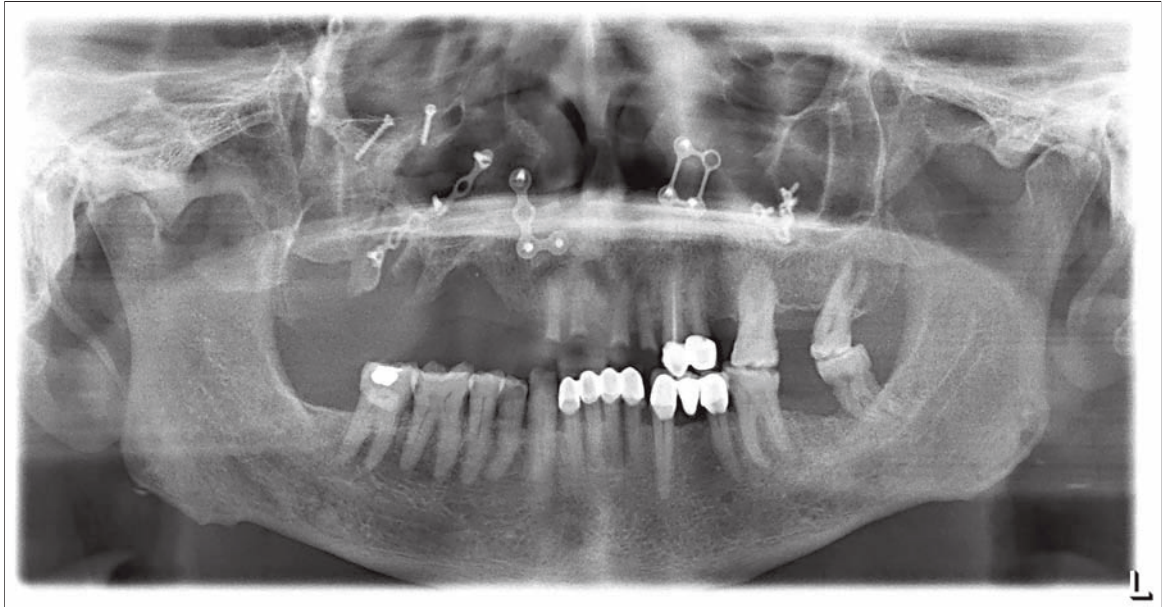
They mainly affect the Asians, and they rarely occur in Caucasians (Niederquell et al. 2016). Only two cases have been reported so far in the Greek literature (Christopoulos and Patrikiou 1991, Georgopoulou et al. 2006).

CASE REPORT

A 77-year-old male patient presented at the outpatient clinic of the Oral and Maxillofacial Surgery Department in November 2016. He complained of a painless swelling in the posterior edentulous area of the maxilla, which had first appeared a year earlier and had grown in size over the previous two months. The patient did not have a partial denture in the area. There were no symptoms of oroantral communication and the Valsalva manoeuvre was negative. In terms of his medical history, he reported that he suffered from arterial hypertension, for which he had been receiving medications. He also reported that 19 years earlier he had been involved in a car accident, in which he suffered multiple mid-face fractures, more specifically Le Fort II fractures on the left and Le Fort III fractures on the right. Due to these injuries, he had undergone surgical reduction and osteosynthesis with the use of titanium plates and screws. More specifically, due to the comminuted fractures in the area of the right zygomatico-orbital complex, the floor of the right orbit, anterior sinus wall and part of the right zygomatic arch had been reconstructed with the use of iliac crest autografts.

The patient was first required to undergo panoramic radiography (Fig. 1) and later also CT scan of the viscerocranium (Fig. 2), which revealed a 3x3cm lesion in the anatomical area of the right maxillary sinus, with smooth and well-defined borders and soft-tissue density. This lesion did not display any contrast enhancement after the intravenous administration of the contrast medium, while it extended downwards reaching the hard palate, at the level of the pterygoid processes.

A biopsy of the lesion was performed in the patient under local anaesthesia, whereby a mucosal tissue specimen and part of the lesion wall were obtained. During



Εικ. 1: Πανοραμική ακτινογραφία.

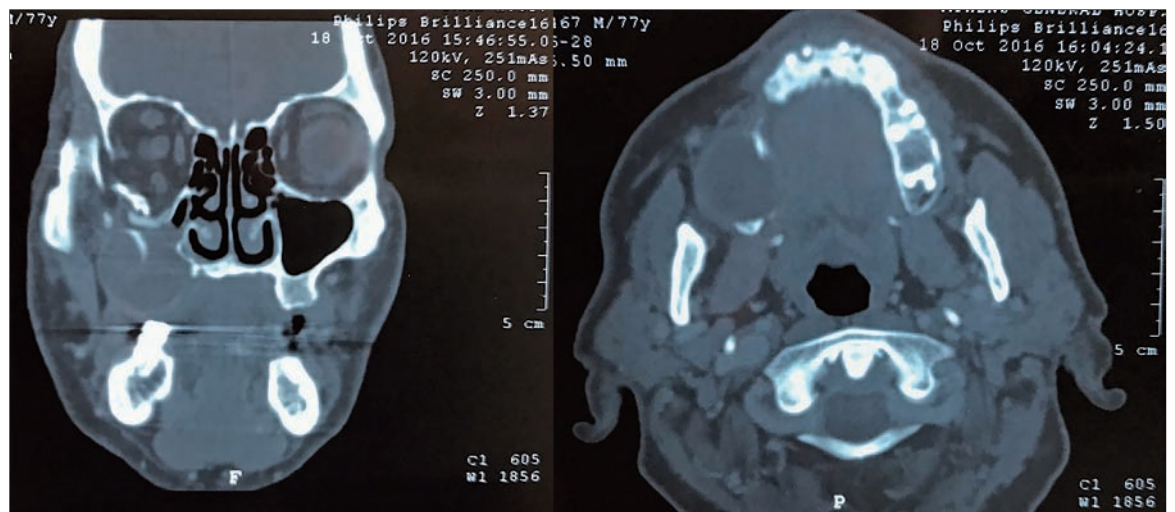
Fig. 1: Panoramic x-ray.

διενέργεια της βιοψίας παρατηρήθηκε εκροή κίτρινου ορώδους υγρού. Τα ιστολογικά ευρήματα ανέδειξαν κύτταρα χρόνιας φλεγμονής και απουσία κακοήθων κυττάρων, οπότε και αποφασίστηκε η εξαίρεση της βλάβης υπό γενική αναισθησία.

Διεχειρητικά έγινε τομή επί της φατνιακής ακρολοφίας με δύο κάθετα σκέλη και μετά την αναπέταση του βλεννογονοπεριοστικού κρημνού, επιβεβαιώθηκε η απουσία της φυσιολογικής οστικής συνέχειας του δεξιού ιγμορείου άντρου, εύρημα συμβατό με το ιστορικό συντριπτικών καταγμάτων. Η βλάβη βρισκόταν κάτω από το βλεννογόνο της νωδής φατνιακής ακρολοφίας, οπότε έγινε προσεκτική παρασκευή του τοιχώματος και εκπυρήνιση. Μετά την έκπλυση της εναπομένουσας κοιλό-

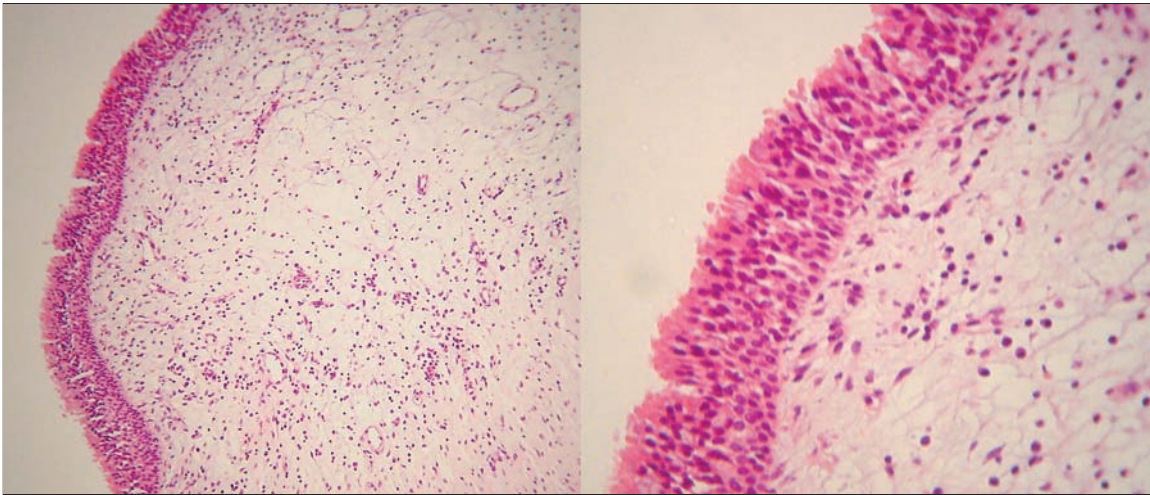
the biopsy, a leak of yellow serous fluid was observed. The histological findings revealed the presence of chronic inflammatory cells and absence of malignant cells, therefore it was decided to excise the lesion under general anesthesia.

Intraoperatively, an incision was made on the alveolar ridge with two vertical releasing incisions and, once the mucoperiosteal flap was raised, it was confirmed that there was a disruption in the continuity of the bone in the right maxillary sinus. This finding was consistent with the patient's history of comminuted fractures. As the lesion was located below the mucosa of the edentulous alveolar ridge, the wall was carefully dissected and the lesion was enucleated. Once the resulting cavity was



Εικ. 2: Αξονική τομογραφία σπλαγχνικού κρανίου (στεφανιαίες και εγκάρσιες τομές).

Fig. 2: CT scan of the viscerocranium (coronal and transverse sections).



Εικ. 3: Τμήμα του κυστικού τοιχώματος που αποτελείται από χαλαρό, οίδηματώδη ινώδη συνδετικό ιστό και επενδύεται από λεπτού πάχους επιθήλιο αναπνευστικού τύπου (χρώση αιματοξυλίνης-ηωσίνης, μεγέθυνση $\times 100$). Μεγαλύτερη μεγέθυνση της προηγούμενης εικόνας. Το κυστικό επιθήλιο είναι ψευδοπολύστιβο κροσσωτό κυλινδρικό. Παρατηρείται επίσης ήπια διάχυτη χρόνια φλεγμονώδης διήθηση του κυστικού τοιχώματος. (χρώση αιματοξυλίνης-ηωσίνης, μεγέθυνση $\times 400$).

Fig. 3: Fragment of a cystic wall made up of loose, edematous fibrous connective tissue, lined with a thin respiratory epithelium (hematoxylin-eosin staining, $\times 100$). Closer view of the previous picture. The cystic epithelium is pseudostratified, ciliated and cylindrical. Mild diffuse chronic inflammatory infiltration of the cystic wall can also be observed (hematoxylin-eosin staining, $\times 400$).

τητας διενεργήθηκε συρραφή κατά πρώτο σκοπό χωρίς τάση.

Μακροσκοπικά, εξαιρέθηκε ένα λευκόφαιο ελαστικό ιστοτεμάχιο διαστάσεων $3 \times 2 \times 1$ εκ., ενώ η ιστοπαθολογική εξέταση (Εικ. 3) έδειξε τμήματα κυστικού τοιχώματος από χαλαρό, οίδηματώδη ινώδη συνδετικό ιστό με ήπια διάχυτη χρόνια φλεγμονώδη διήθηση, τα οποία επενδύονταν από λεπτού πάχους ψευδοπολύστιβο κυλινδρικό κροσσωτό επιθήλιο, ευρήματα συμβατά με κροσσωτή χειρουργική κύστη.

Η μετεγχειρητική πορεία εξελίχθηκε ομαλά, στον ασθενή χορηγήθηκε αντιβιοτική, αναλγητική και αποσυμφορητική αγωγή και 9 μήνες μετά παραμένει ελεύθερος συμπτωμάτων (Εικ. 4).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Η κροσσωτή χειρουργική ή αλλιώς μετεγχειρητική κύστη της άνω γνάθου είναι μια καλοήθης βλάβη, που αναπτύσσεται κυρίως στην άνω γνάθο, μετά από μια χειρουργική επέμβαση στην περιοχή και ενίοτε στην κάτω γνάθο, αν ο ασθενής έχει υποβληθεί σε ορθογναθική επέμβαση (Li και συν. 2014).

Ο Kubo πρότεινε σαν πιθανό παθογενετικό μηχανισμό τη διενέργεια μιας χειρουργικής επέμβασης στην άνω γνάθο, κατά την οποία, είτε παγιδεύεται βλεννογόνος ιγμορείου, είτε κατακρατείται αίμα και υγρό των ιστών, δημιουργώντας μια κυστική κοιλότητα. Φαίνεται πως οι φλεγμονώδεις διεργασίες επάγουν την κυστική αλλαγή του παγιδευμένου αναπνευστικού βλεννογόνου, ενώ η διαφορά ωσμωτικής πίεσης από τους περιβάλλοντες ιστούς οδηγεί στη περαιτέρω αύξηση της κύστης (Leung και συν. 2012).

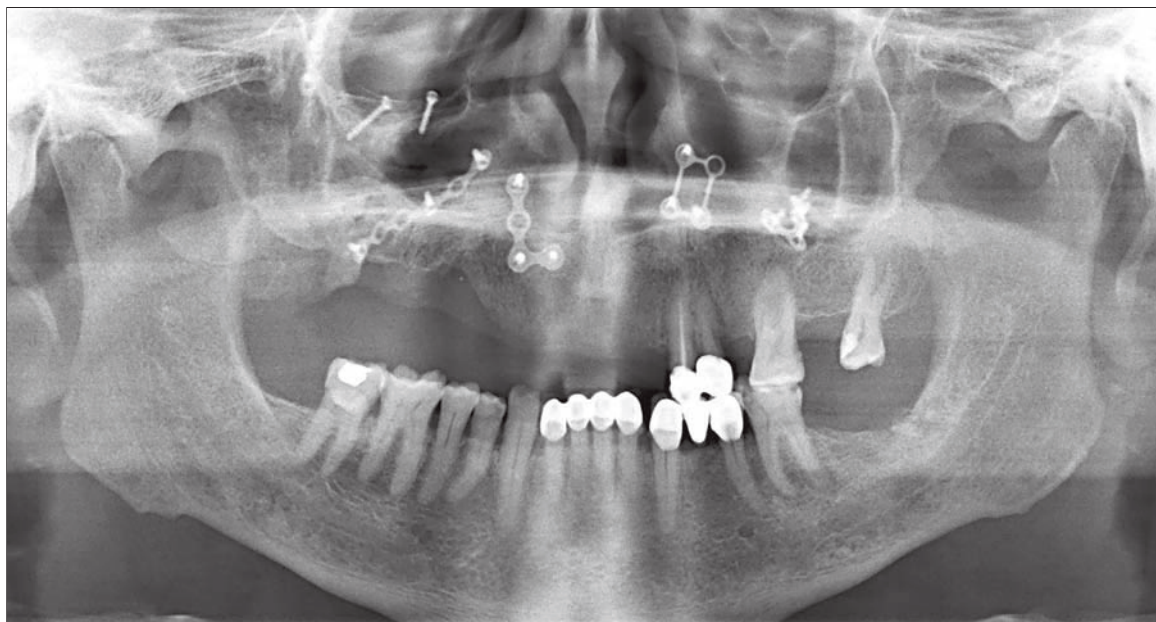
rinsed, primary closure was performed without tension. Macroscopically, a $3 \times 2 \times 1$ cm grayish elastic tissue specimen had been removed, while the histopathological examination (Fig. 3) revealed fragments of a cystic wall made up of loose, edematous fibrous connective tissue with mild diffuse inflammatory infiltration, which was lined with a thin pseudostratified cylindrical ciliated epithelium. These findings were consistent with a diagnosis of a surgical ciliated cyst.

The patient's postoperative course was uneventful. He was prescribed antibiotics, analgesics and decongestants. Nine months postoperatively, he remains free of symptoms (Fig. 4).

DISCUSSION

Surgical ciliated cysts, also known as postoperative maxillary cysts, are benign lesions induced after a surgical procedure in the maxillary area, but sometimes also in the mandible of patients who have had orthognathic surgery (Li et al. 2014).

In terms of the potential pathogenetic mechanism of these cysts, Kubo suggested that they result from the performance of a surgical operation in the maxilla, during which cells of the respiratory lining get trapped, or tissue blood and fluid are retained, forming a cystic cavity. It appears that the inflammatory processes lead to the cystic change of the trapped respiratory lining and the osmotic pressure difference from the adjacent tissues results in the further enlargement of the cyst (Leung et al. 2012).



Εικ. 4: Μετεγχειρητική πανοραμική ακτινογραφία, 8 μήνες μετά την αρχική επέμβαση.

Fig. 4: Postoperative panoramic x-ray, 8 months after the initial operation.

Οι χειρουργικές επεμβάσεις στην άνω γνάθο, κατά τις οποίες μπορεί να συμβεί αυτή η ιατρογενής εμφύτευση αναπνευστικού επιθηλίου αφορούν τη ριζική ανάτρηση ιγμορείου κατά Caldwell-Luc, τη Le Fort I οστεοτομία, την οστεοσύνθεση καταγμάτων μέσου τριτημορίου, ή ακόμα και την ανύψωση του εδάφους του ιγμορείου (Li και συν. 2014).

Ειδικά για την ορθογναθική χειρουργική έχει διατυπωθεί η υπόθεση ότι πιθανός παθογενετικός μηχανισμός είναι η παγίδευση ρινικού βλεννογόνου ή βλεννογόνου ιγμορείου κατά τη διάρκεια της οστικής επούλωσης. Για το λόγο αυτό προτείνεται η συρραφή οποιασδήποτε διάσχισης του βλεννογόνου, η επαρκής αιμόσταση, καθώς και η αλλαγή της λάμας του νυστεριού για κάθε γνάθο, ώστε να αποφεύγεται η μεταφορά και εμφύτευση κυττάρων, που είναι και μια πιθανή εξήγηση για την απουσία των βλαβών αυτών στην κάτω γνάθο (Anastassov και Lee, 1999, Hayhurst και συν. 1993).

Η κροσσωτή χειρουργική κύστη είναι από τις πιο συχνές κύστεις της άνω γνάθου στην Ιαπωνία, με επίπτωση που κυμαίνεται από 3% - 20%, ακόμα και 49 έτη μετά την πρώτη επέμβαση (Cano και συν. 2009). Η μεγάλη συχνότητα στην Ιαπωνία έχει αποδοθεί στο γεγονός ότι αρκετά περιστατικά χρόνιας ιγμορίτιδας, πριν το 1970, αντιμετωπίζονταν πρωτίστως χειρουργικά, αντί της συντηρητικής φαρμακευτικής αγωγής (Kaneshiro και συν. 1981).

Παραμένει άγνωστο γιατί παρατηρείται συχνότερα σε Ασιάτες, απ' ότι σε Καυκάσιους (Niederquell και συν. 2016). Οι Nishioka και συν. (Nishioka και συν. 2005) σε μια 20ετή ανασκόπηση της βιβλιογραφίας κατέγραψαν 1233 περιστατικά σε Ασιάτες και 87 σε Καυκάσιους, πιθανολογώντας πως υπάρχουν ιδιαιτερότητες στην αρχι-

The maxillary surgical operations, during which this iatrogenic trapping of respiratory epithelium can happen, include Caldwell-Luc radical antrostomy, Le Fort I osteotomy, osteosynthesis in mid-face fractures, or even sinus floor elevation (Li et al. 2014).

Specifically in orthognathic surgery, it has been hypothesised that a potential pathogenetic mechanism involves nasal or sinus mucosa getting trapped during bone healing. Therefore, it is recommended that any slits in the mucosa are sutured, and that a different scalpel blade is used in the maxilla and mandible, to prevent the spread and implantation of cells, which is a possible explanation for the absence of lesions in the mandible (Anastassov and Lee, 1999, Hayhurst et al. 1993).

Surgical ciliated cysts are among the most common types of maxillary cysts in Japan, with an incidence rate of 3%-20%, even 49 years after the initial operation (Cano et al. 2009). This high incidence rate in Japan has been associated with the fact that prior to 1970, several cases of chronic sinusitis would be treated primarily by surgical means, as opposed to the use of a conservative treatment with medications (Kaneshiro et al. 1981).

It remains unclear why it is more common in Asians than it is in Caucasians (Niederquell et al. 2016). In a 20-year literature review, Nishioka et al. (Nishioka et al. 2005) recorded 1,233 cases involving Asians and 87 Caucasians, and hypothesised that there are differences in the bone architecture and microbial agents. No gender preference was detected, as the ratio of men to women was 1.4:1.

In terms of the main symptoms, Sato et al. (Sato et al. 1969) report swelling in the posterior maxillary area

τεκτονική του οστού, καθώς και στους μικροβιακούς παράγοντες. Δεν παρατηρήθηκε προτίμηση στο φύλο, καθώς η αναλογία ανδρών: γυναικών ήταν 1,4:1.

Οι Sato και συν. (Sato και συν. 1969) αναφέρουν σαν προέχον σύμπτωμα τη διόγκωση στην οπίσθια κυρίως περιοχή της άνω γνάθου (64,7%), καθώς και άλγος στην περιοχή της παρειάς ή του προσώπου (44,1%), έκπτυξη του προστομιακού ή του υπερώου οστικού πετάλου (32%) και δημιουργία συριγγίου (14,7%). Άλγος και πύρροια μπορεί να συνυπάρχουν σε περίπτωση διάπυσης (Sugar και συν. 1990).

Καθώς το μέγεθος της κύστης αυξάνει, τα τοιχώματα του ιγμορείου λεπταίνουν και τελικά διατιπρώνται, οπότε και μπορεί να δοθεί η εντύπωση κακοήθους εξεργασίας (Gardner και Gullane, 1986, Basu και συν. 1985).

Οι Seifi και συν. (Seifi και συν. 2016) αναφέρουν κροσσωτές κύστες και στην κάτω γνάθο, αμφοτερόπλευρα στην οπίσθια περιοχή και στο γένειο, σε ασθενή που είχε υποβληθεί σε αμφιγναθική ορθογναθική χειρουργική με πρόωθηση γενείου. Σε αυτή την εργασία πρότειναν τον όρο 'έκτοπη κροσσωτή κύστη'. Ενδιαφέρον παρουσιάζει η αμφοτερόπλευρη ανάπτυξη κροσσωτών κύστεων στην άνω γνάθο, 21 χρόνια μετά τη διενέργεια Le Fort I οστεοτομίας (Lee και συν. 2014). Εξαιρετικά σπάνια περιγράφεται η κροσσωτή κύστη στην περιοχή του έσω κανθού, και αναφέρεται σε δύο περιστατικά, το πρώτο, 10 έτη μετά την ανάταξη καταγμάτων μέσου τριτημορίου (An και Zhang, 2014) και το δεύτερο, 4 έτη μετά οστεοτομία Le Fort III (Leung και συν. 2012).

Στην ελληνική βιβλιογραφία έχουν περιγραφεί δύο περιπτώσεις. Το 1991, από τους Χριστόπουλο και Πατρικίου (Christopoulos και Patrikiou, 1991), σε γυναίκα 57 ετών, που ανέπτυξε κροσσωτή χειρουργική κύστη, 11 έτη μετά επέμβαση Caldwell-Luc για αφαίρεση πολύποδων από την κοιλότητα του ιγμορείου και το 2006, από τους Γεωργοπούλου-Μπάδα και συν. (Georgopoulou και συν. 2006) σε άντρα 76 ετών, με παρόμοιο ιστορικό προ 30ετίας.

Απεικονιστικά αναδεικνύεται στην πανοραμική ακτινογραφία ή στην ακτινογραφία παραρρίων κόλπων μια σαφώς περιγεγραμμένη ακτινοδιαυαστική βλάβη, η οποία συχνά περιβάλλεται από σκληρωτικό όριο και είναι συνήθως μονόχωρη (Miller και συν. 1988, Li και συν. 2014). Περαιτέρω διερεύνηση μπορεί να γίνει με αξονική τομογραφία σπλαγχνικού κρανίου.

Ιστοπαθολογικά η κύστη επενδύεται από ψευδοπολύστιβο κροσσωτό κυλινδρικό επιθήλιο με πλακώδη μεταπλασία. Μπορεί να υπάρχει συνδυασμός κροσσωτού, κυβοειδούς και πλακώδους επιθηλίου με ποικίλο αριθμό βλενωδών κυττάρων. Συχνότερα απαντάται το κροσσωτό επιθήλιο. Ο υποκείμενος συνδετικός ιστός μερικές φορές εμφανίζει υαλινοποίηση (Maeda και συν. 1987).

Στη διαφορική διάγνωση πρέπει να συμπεριλαμβάνεται η βλενοκλήη του ιγμορείου άντρου, η οποία είναι μια κυστική αλλοίωση, γεμάτη βλέννη, που επενδύεται από

(64.7%), as well as pain in the buccal or facial area (44.1%), expansion of the vestibular or palatal bone plate (32%) and fistula formation (14.7%). Pain and pyorrhoea may coexist in cases of suppuration (Sugar et al. 1990). As the size of the cyst increases, the walls of the sinus become thinner and eventually rupture, which may result in an image that resembles a malignant lesion (Gardner and Gullane, 1986, Basu et al. 1985).

Seifi et al. (Seifi et al. 2016) report ciliated cysts in the mandible too, bilaterally in the posterior area and chin of a patient that had undergone bi-maxillary orthognathic surgery with chin advancement. In this study, they proposed the use of the term "ectopic ciliated cyst". Another interesting case involves the bilateral development of maxillary ciliated cysts 21 years after the performance of a Le Fort I osteotomy (Lee et al. 2014). Ciliated cysts in the area of the inner canthus are very rare, and just two cases have been reported, one occurred 10 years after mid-face fracture reduction (An and Zhang, 2014), and the second 4 years after a Le Fort III osteotomy (Leung et al. 2012).

Two cases have been reported in the Greek literature. The first one was reported in 1991 by Christopoulos and Patrikiou (Christopoulos and Patrikiou, 1991), and involved a 57-year old female patient who developed a surgical ciliated cyst 11 years after a Caldwell-Luc operation for the removal of polyps from the sinus cavity. The second one was reported by Georgopoulou-Bada et al. in 2006 (Georgopoulou et al. 2006) and involved a 76-year-old male patient with a similar medical background from 30 years earlier.

In imaging terms, the panoramic x-ray or x-ray of the paranasal cavities reveal a well-defined radiolucent lesion, which is often surrounded by a sclerotic rim and is usually single-spaced (Miller et al. 1988, Li et al. 2014). Further investigation can be carried out by means of a CT scan of the viscerocranium.

In histopathological terms, the cyst is lined with pseudostratified cylindrical ciliated epithelium with squamous metaplasia. There might be a combination of ciliated, cuboid and squamous epithelium with a varying number of mucosal cells. Ciliated epithelium is more common. The underlying connective tissue is sometimes vitrified (Maeda et al. 1987).

Differential diagnosis should include mucocoele of the maxillary sinus - a cystic lesion that is filled with mucus and lined with sinus epithelium - which can occupy the entire sinus cavity and is associated with chronic obstruction of the maxillary sinus ostium (Georgopoulou et al. 2006, Mervyn and Speight, 2007). It should also include sinus pseudocyst, which resembles a localised collection of inflammatory exudates, that lifts the sinus mucosa from the underlying bone, and finally odontogenic cysts, such as periapical and odontogenic keratocyst (Nishioka et al. 2015).

επιθήλιο ιγμορείου, καταλαμβάνοντας ακόμα και ολόκληρη την κοιλότητα αυτού και σχετίζεται με χρόνια απόφραξη του στομίου του γναθιαίου κόλπου (Georgoroulou και συν. 2006, Merlyn και Speight, 2007). Θα πρέπει να συμπεριλαμβάνονται ακόμα, η ψευδοκύστη ιγμορείου, που αναπαριστά μια εντοπισμένη συλλογή φλεγμονώδους εξιδρώματος, που εγείρει το βλεννογόνο του ιγμορείου από το υποκείμενο οστόν και τέλος οι οδοντογενείς κύστεις, όπως η ακρορριζική και η οδοντογενής κερατινοκύστη (Nishioka και συν. 2015).

Η θεραπεία έγκειται στην εκπυρήνιση ή τη μαρσιποποίηση της κύστης, εάν το μέγεθός της είναι πολύ μεγάλο. Υποτροπή δύναται να παρουσιαστεί επί ατελούς αφαίρεσης, αλλά γενικώς η πρόγνωση είναι καλή (Yoshikawa και συν. 1982, Koo Min Chee και συν. 2014).

Η ιδιαιτερότητα της περίπτωσης που παρουσιάζουμε, όσον αφορά τα ελληνικά βιβλιογραφικά δεδομένα, είναι η ανάπτυξη της κύστης, μετά από επέμβαση ανάταξης καταγμάτων μέσου τριτημορίου. Η χρονική εμφάνιση της βλάβης, συνάδει με τα βιβλιογραφικά δεδομένα για την εμφάνισή της, ακόμα και 50 έτη μετά την πρώτη χειρουργική επέμβαση.

ΣΥΜΠΕΡΑΣΜΑΤΑ

Η κροσσωτή χειρουργική κύστη είναι μια απώτερη μετεχειρητική επιπλοκή επεμβάσεων στην άνω και σπανιότερα στην κάτω γνάθο, λόγω ιατρογενούς εμφύτευσης αναπνευστικού επιθηλίου. Εμφανίζεται κυρίως στον Ασιατικό πληθυσμό και σπανιότερα στους Καυκάσιους. Η κλινική εικόνα της βλάβης έγκειται κυρίως στην ασυμπτωματική διόγκωση της οπίσθιας περιοχής της άνω γνάθου. Ως εκ τούτου, οι ασθενείς θα πρέπει να ενημερώνονται για την πιθανότητα εμφάνισης αυτής της σπάνιας επιπλοκής και να παρακολουθούνται για μακρύ χρονικό διάστημα.

Treatment involves the enucleation or marsupialisation of the cyst, if it is very large in terms of size. There is a risk of relapse if the removal is incomplete, however prognosis is generally good (Yoshikawa et al. 1982, Koo Min Chee et al. 2014).

In the context of the Greek literature data, the case presented here is of particular interest due to the fact that the cyst developed after a mid-face fracture reduction operation. The timing of the development of this lesion is consistent with the literature findings, which indicate a potential development even 50 years after the initial operation.

CONCLUSIONS

Surgical ciliated cyst is a late postoperative complication of operations in the maxilla, and rarely also the mandible, due to the iatrogenic implantation of respiratory epithelium. It is more common in the Asians and rarer in Caucasians. The clinical appearance of the lesion mainly involves an asymptomatic swelling in the posterior area of the maxilla. Therefore, the patients should be informed about the possibility of experiencing this rare complication and remain in follow-up for a long period of time.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ/REFERENCES

- An J, Zhang Y: Surgical ciliated cyst of the medial canthal region after the management of a midfacial fracture: a case report. *J Craniofac Surg* 25(2):701-2, 2014.
- Anastassov GE, Lee H: Respiratory mucocele formation after augmentation genioplasty with nasal osteocartilaginous graft. *J Oral Maxillofac Surg* 57(10):1263-5, 1999.
- Basu MK, Rout PGJ, Rippen JW and Smith AJ: Postoperative maxillary cyst. *IRCS Medical Science* 13:562, 1985.
- Cano J, Campo J, Alobera MA, Baca R: Surgical ciliated cyst of the maxilla. Clinical case. *Med Oral Pathol Oral Cir Bucal* 14(7):E361-4, 2009.
- Christopoulos P, Patrikiou A : Post operative maxillary cyst. *Stomatologia* 48(3):150-151, 1991.
- Gardner DG and Gullane PJ : Mucocoeles of the maxillary sinus. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology* 62(5):538-543, 1986.
- Georgopoulou M.- Bada, Tosios KI, Choupis K : Postoperative maxillary cyst (Surgical ciliated cyst). Report of a case and review of the literature. *Stomatologia* 63(1):33-39, 2006.
- Gregory GT, Shafer WG: Surgical ciliated cysts of the maxilla: report of cases. *J Oral Surg* 16(3):251-3, 1958.
- Hayhurst DL, Moenning JE, Summerlin DJ, Bussard DA: Surgical ciliated cyst: a delayed complication in a case of maxillary orthognathic surgery. *J Oral Maxillofac Surg* 51(6):705-8, 1993.
- Kaneshiro S, Nakajima T, Yoshikawa Y, Iwasaki H, Tokiwa N: The postoperative maxillary cyst: report of 71 cases. *J Oral Surg* 39(3):191-8, 1981.
- Koo Min Chee CA, Brierley DJ, Hunter KD, Pace C, McKechnie AJ: Surgical ciliated cyst of the maxilla following maxillary osteotomy: a case report. *Oral Surgery* 7(1):39-41, 2014.
- Kubo I: A buccal cyst occurred after a radical operation of the maxillary sinus. *Z F Otol Tokyo* 3:896-7, 1927.
- Lee JH, Huh KH, Yi WJ, Heo MS, Lee SS, Choi SC: Bilateral postoperative maxillary cysts after orthognathic surgery: A case report. *Imaging Shi Dent* 44(4):321-4, 2014.
- Leung YY, Wong WY, Cheung LK: Surgical ciliated cysts may mimic radicular cysts or residual cysts of maxilla: Report of 3 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 70(4):e264-9, 2012.
- Li CC, Feinerman DM, MacCarthy KD, WooSB: Rare mandibular ciliated cysts: report of two new cases. *J Oral Maxillofac Surg* 72(9):1736-43, 2014.
- Maeda Y, Osaki T, Yoneda K, Hirota J: Clinicopathologic studies on postoperative maxillary cysts. *Int J Oral Maxillofac Surg* 16(6):682-681, 1987.
- Mervyn S & Speight P : Cysts associated with the maxillary antrum, In: Mervyn Shear and Paul Speight: Cysts of the oral and maxillofacial regions, Blackwell Munksgaard 2007, pp.162-170.
- Miller R, Longo J, Houston G : Surgical ciliated cyst of the maxilla. *J Oral Maxillofac Surg* 46(4):310-2, 1988.
- Niederquell BM, Brennan PA, Dau M, Moergel M, Frerich B, Kämmerer PW: Bilateral postoperative cyst after maxillary sinus surgery: Report of a case and systematic review of the literature. *Case Rep Dent* 2016:6263248, 2016.
- Nishioka M, Pittella F, Hamagaki M, Okada N, Tagaki M: Prevalence of postoperative maxillary cyst significantly higher in Japan. *Oral Medicine & Pathology* 10(1):9-13, 2005.
- Sato T, Shiota S, Nakanishi H, Tsukamoto K: Statistical study of the postoperative maxillary cyst at Kyoto University Hospital. *Kyoto Daigaku Kokukagaku Kiyo*, 9(3):141-53, 1969.
- Seifi S, Sohanian S, Khakbaz O, Abesi F, Aliakbarpour F, Rayani A: Ectopic ciliated cyst in the mandible secondary to genioplasty and LeFort after two years: A Case Report and Literature Review. *Iran J Otorhinolaryngol* 28(88):353-356, 2016.
- Sugar AW, Walker DM, Bounds GA: Surgical ciliated (postoperative maxillary) cysts following mid-face osteotomies. *Br J Oral Maxillofac Surg* 28(4):264-7, 1990.
- Yoshikawa Y, Nakajima T, Kaneshiro S, Sakaguchi M: Effective treatment of the postoperative maxillary cyst by marsupialization. *J Oral Maxillofac Surg* 40(8):487-91, 1982.

Διεύθυνση επικοινωνίας:

Μαρία Φυργιόλα

Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής,

ΓΝΑ «Γ. Γεννηματάς», Λ. Μεσογείων 154, Αθήνα

Τηλ.: 213 2032506, Κιν.: 6948 605111

e-mail: mariafyrgiola@gmail.com

Address:

Maria Fyrgiola

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, "G. Gennimatas"

General Hospital of Athens, 154 Mesogeion Ave., Athens, Greece

Tel.: +30 2132032506, Mob.: +30 6948605111

e-mail: mariafyrgiola@gmail.com