

多发牙源性角化囊肿术后病理性骨折保守治疗 1 例 及文献分析

徐晨 常红光 邵强 宋永海
淄博市中心医院口腔颌面外科, 淄博 255036

[摘要] 颌骨囊肿术后病理性骨折是一种严重的手术并发症, 临床罕见。一旦出现病理性骨折, 处理往往较为棘手, 患者的治疗时间和经济成本增加。本文报道 1 例颌骨多发牙源性角化囊肿术后下颌骨病理性骨折的患者, 采用保守治疗的方案, 治疗效果良好。同时结合相关文献探讨分析, 为临床医师提供参考。

[关键词] 病理性骨折; 牙源性角化囊肿; 下颌骨; 保守治疗

[中图分类号] R782.4 **[文献标志码]** B **[doi]** 10.7518/hxkq.2024.2024212



本文链接 开放科学标识码

Conservative treatment of pathological fracture after multiple odontogenic keratocyst surgery: a case report and literature analysis

Xu Chen, Chang Hongguang, Shao Qiang, Song Yonghai

Dept. of Oral and Maxillofacial Surgery, Zibo Central Hospital, Zibo 255036, China

Correspondence: Song Yonghai, E-mail: songyonghai1983@163.com

[Abstract] Pathological fractures after jaw cyst surgery are rare clinically but are a serious complication. Once a pathological fracture occurs, treatment time and economic costs increase, and doctors face difficulty in handling it. This article reports a case of a patient with mandibular pathological fractures after multiple odontogenic keratocyst surgery of the jaw. Mandibular lesions were located in the bilateral mandibular angles and had macrocystic changes. We adopted a conservative treatment plan, and the treatment effect was good. We also discussed and analyzed relevant literature to provide a reference for clinicians.

[Key words] pathological fracture; odontogenic keratocyst; mandible; conservative treatment

颌骨病理性骨折是指发生在颌骨已有病变基础上, 该病变导致颌骨强度削弱而导致的骨折^[1]。病变既包括颌骨本身发生的占位病变, 如颌骨囊肿和肿瘤等, 也包括治疗原发病而使颌骨受到影响的疾病, 如放射性颌骨坏死、药物相关性颌骨坏死等^[2-3]。颌骨囊肿为口腔颌面外科常见病、多发病, 其中牙源性囊肿约占 74.7%^[4], 包括根尖周囊肿、含牙囊肿及牙源性角化囊肿等。牙源性角化囊肿病理性骨折罕见报道。本文报告 1 例多发角

化囊肿术后下颌骨病理性骨折的患者, 结合相关文献探讨病因、临床表现、诊断及治疗方法。

1 病例资料

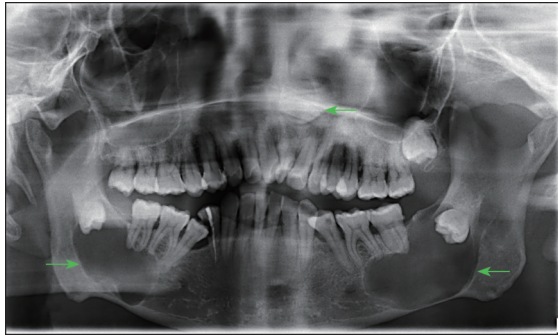
患者, 男, 49 岁, 因“发现双侧下颌骨囊性肿物 4 年”入院。患者 4 年前因耳部疼痛不适于外院拍片, 发现双侧下颌骨低密度影。患者当时未行处理。近期患者于淄博市中心医院口腔颌面外科门诊就诊复查肿物明显增大, 收治入院。专科检查: 颌面部基本对称, 上下颌骨未见明显膨胀畸形, 双侧颞下颌关节活动对称无压痛, 开口型、开口度正常, 面部表情肌功能正常, 唇无麻木。口内轻度牙周炎表现, 牙齿见结石、色素沉着;

[收稿日期] 2024-05-29; **[修回日期]** 2024-09-24

[第一作者] 徐晨, 主治医师, 硕士, E-mail: xuchen19870123@126.com

[通信作者] 宋永海, 主治医师, 硕士, E-mail: songyonghai1983@163.com

咬合关系无紊乱; 38、48口内未见萌出; 前庭沟无明显膨隆及乒乓球样感; 余(-)。辅助检查: 全景片示双侧下颌骨低密度影, 累及双侧下颌角、下颌骨体部及多颗牙齿, 边界清, 可见骨白线, 下方达下颌骨下缘; 左上颌前牙区可见埋伏多生牙影, 牙齿周见低密度影包绕(图1)。患者吸烟史30余年, 1包/天, 既往史无特殊。



箭头示病变位置。

图1 患者术前全景片

Fig 1 Panoramic radiograph of the patient before surgery

排除手术禁忌后, 全麻下于患者口内47-48及磨牙后区对应前庭沟黏膜做类圆形切口, 切除黏骨膜及部分骨质, 进入囊肿内部。囊肿内含黄色液体, 囊壁厚, 可见大量角化物, 囊内无分隔。取部分囊壁送病理。同法于左下颌骨病变处开窗, 术中38、48一并拔除。下颌骨两处切口充分开窗不缝合, 留作窗口, 两侧各置碘仿纱条1根。左上颌骨囊肿予以翻瓣暴露后直接刮除, 内含多生牙一并拔除。病理诊断为: 牙源性角化囊肿(3处)。

术后常规给予患者抗感染消肿支持治疗, 3d过后患者面部肿痛逐渐减轻, 无下唇及舌麻木感, 术区无积液感染表现, 咬合关系正常。然而术后第8天患者再次出现右侧术区疼痛, 抽除部分碘仿纱条后仍不能缓解。查体: 右侧咬肌区轻度肿胀、触痛, 轻度张口受限, 口内见咬合关系紊乱, 部分牙齿开骀, 咬合时不能对位。考虑骨折可能性大, 予以下颌骨CT三维重建证实: 右侧下颌角病理性骨折(图2)。

结合文献报道及患者骨折移位实际情况, 告知患者治疗方案有两种: 1) 保守治疗, 即上下颌牙弓夹板颌间结扎牵引治疗; 2) 手术治疗, 即下颌骨重建板重建术或下颌骨截骨后游离骨移植术, 两者术后也需短期配合牙弓夹板颌间牵引治疗。向患者说明不同方案所需时间、创伤大小及风险并发症, 患者选择先行保守治疗。遂行16-26、36-

46牙弓夹板固定, 弹性橡皮筋颌间牵引。患者经牵引后咬合关系恢复, 出院后门诊按时复查, 更换碘仿纱条及橡皮圈。4周后拆除牙弓夹板, 嘱适当制动, 流质饮食, 咬合关系稳定无改变。术后2年复查锥形束CT(cone beam computed tomography, CBCT)及全景片(图3、4), 病变区持续成骨改建无复发, 咬合正常, 骨折愈合。

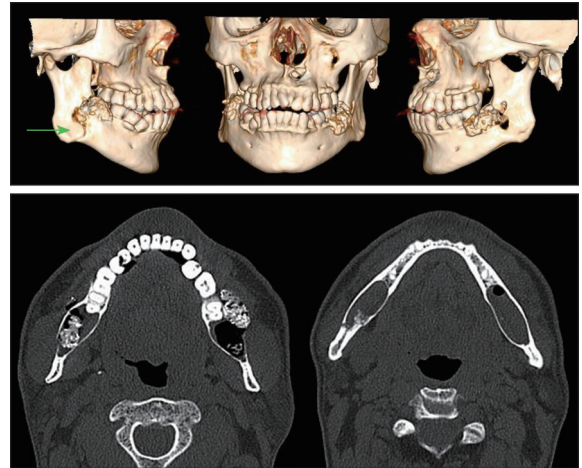


图2 三维重建及水平位扫描示骨折位置(箭头)和颌骨缺损, 咬合关系紊乱

Fig 2 Three-dimensional reconstruction and horizontal scan show the fracture location (arrow) and jaw defect, with disordered occlusion

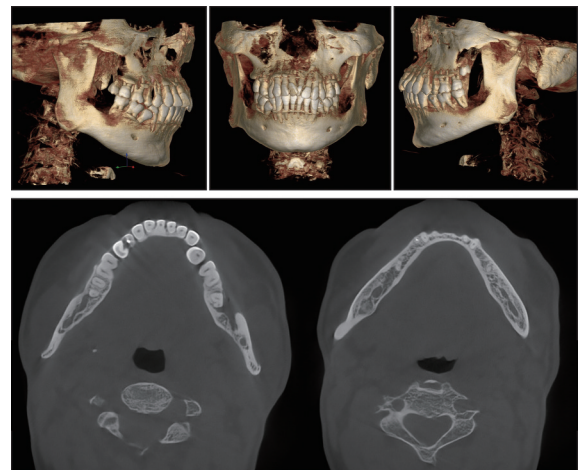


图3 术后2年CBCT示颌骨成骨改建, 咬合正常

Fig 3 CBCT shows bone remodeling and normal occlusion two years after surgery

2 讨论

牙源性角化囊肿发生率约占所有颌骨囊肿的3.3%~17.4%^[5]。目前研究^[6]认为其起源于残留的牙源性上皮组织和口腔黏膜的基底细胞错构, 其发

生与局部组织缺陷和外界刺激因素有关。病变多累及下颌骨，通常沿下颌骨长轴生长，膨隆较其他颌骨囊肿及肿瘤不明显。约一半以上出现在下颌骨后份，并向下颌支延伸。临床常见症状包括面部肿痛、口内溢脓、牙齿松动，可合并间隙感染、感觉麻木、皮肤瘻管、病理性骨折等。亦有部分患者无明显症状，在口腔检查中偶然被发现。牙源性角化囊肿患者中约有12.5%发生多个囊肿或表现为Golin-Goltz综合征的其他特征^[7-8]。本例患者为上下颌3处囊肿，暂未见综合征的其他表现，体现了表型的差异。

对于颌骨囊性病变，有刮治术和开窗减压术两种手术方案。刮治术适用于范围较小的、单房性颌骨囊肿。可一次清除病变，创口一期关闭。对于皮质骨破坏严重，剩余骨薄弱，无法充分去骨显露术区以致不能完全去除病变者，不建议应用刮治术^[9]。开窗术的适应证为大型颌骨囊性病变，累及多颗牙齿及重要解剖结构（如下牙槽神经管、上颌窦和鼻腔等），因继发感染致张口受限者，因全身情况不佳不能耐受较大手术创伤者^[10]。具体到该患者，为避免患者下唇麻木，减小颌骨创伤，保留磨牙牙髓活力，对于双侧下颌角区大

囊性病变采用了开窗术。而左上颌病变局限，适宜刮除后直接关闭创面。



图 4 术后2年全景片示骨小梁形成

Fig 4 Panoramic view shows trabecular formation two years after surgery

通过检索国内外文献，明确病理为牙源性角化囊肿的病理性骨折罕见报道，仅有4篇文献共5例患者^[11-14]（表1）。4例患者采用了开放性手术方式治疗，其中有2例一并进行了髂骨松质骨植入；仅1例患者为复发角化囊肿二次手术后发生病理性骨折，经颌间结扎处理，骨折愈合，但因文章重点并非病理性骨折，故该患者详细治疗经过及资料未予展示。

表 1 牙源性角化囊肿病理性骨折患者资料

Tab 1 Data on patients with pathological fractures caused by odontogenic keratocyst

病例	作者	性别	年龄	主诉	骨折部位	治疗方式
1	Ezsiás等 ^[11]	男	27	咬合错乱、疼痛	右侧下颌角	重建板+髂骨松质植入
2	Matisse等 ^[12]	男	30	疼痛、咬合错乱	左下颌骨体部	骨内钢丝+髂骨松质植入
3	江中军等 ^[13]	男	37	术中骨折	左侧下颌角	骨内钢丝+颌间结扎
4	江中军等 ^[13]	男	70	咬合错乱、张口受限、中线偏移	左侧下颌角	钛板内固定+颏兜制动
5	周景兰等 ^[14]	不详	不详	不详	不详	颌间结扎

2.1 病因

颌骨为非负重骨，与长骨相比，病理性颌骨骨折发生率极低，约占所有颌骨骨折的0.47%~4%^[11]。病理性骨折是指正常时不足以引起骨折的外力或没有施加任何外力而由于全身性或局部性情况引起的骨折。通常发生骨折的骨已有已知病变或隐匿性的病理改变。这些病变包括颌骨炎症（牙源性感染、放射性骨髓炎、药物性骨坏死等）、颌骨囊性病变、颌骨良性肿瘤、颌骨原发或转移恶性肿瘤^[2-3]。与良性囊性病变相关的下颌骨病理性骨折相对少见，尤其是源于牙源性角化囊肿的病变。大多数骨折发生在咀嚼过程中或患者发生意外时。本研究中患者病变位于下颌角应力集中区，且为双侧大囊性病变，骨质缺损多，导致下颌角区强度明显降低，骨折风险增加。该患者术

后数日内虽然严格进行了流质饮食，但因工作原因，术后每天熬夜进行手机及电脑的操作。疲劳感使得患者打哈欠的频率明显增加，患者逐渐出现了疼痛及咬合紊乱。有研究^[15]表明下颌骨病理性骨折通常是前部降肌和后部提肌生理活动的结果，下颌角是口腔内力和口外力的薄弱部位。本例患者打哈欠后出现骨折也说明，薄弱的下颌角区因为应力集中和不断的肌肉力量作用，最终不能承受肌肉的正常生理活动而出现骨折。此外，对于术前估计病理性骨折风险很大的患者，需慎重分析阻生牙拔除后下颌角区应力改变情况。囊内阻生牙的拔除往往可以使开窗口更通畅有效，但如果拔除时需要去除过多骨组织，可能影响到下颌骨的生物力学强度，则应考虑二期手术拔除。有研究^[16]表明，由于下颌第三磨牙不同程度的阻

生,使得局部区域的骨量减少,骨的应力屏障减少,导致了下颌角区骨折发生率增加。且阻生位置越低、下颌角区骨体纯高度越低,下颌骨缓冲外力打击的抗力则越低。该患者38、48阻生牙位于囊肿上缘,牙冠完全暴露于囊腔对开窗口有阻挡,不利于后期换药及塞治器的佩戴。为了使开窗口达到合适大小,选择拔除38、48牙。由于阻生牙牙冠无骨质覆盖,术中仅用牙挺小心施力,顺牙长轴方向将牙齿朝囊腔内挺出,尽量避免进一步去骨。但不可否认该部位拔牙创的存在,可能使得外斜线上方骨强度下降,从而产生应力改变,增加了骨折风险。

2.2 临床表现和鉴别诊断

下颌骨病理性骨折的临床表现与创伤导致的骨折表现大部分相同,包括骨折段移位及异常动度、咬合错乱、下唇麻木、张口受限、肿胀疼痛等。结合患者病史及影像学检查,病理性骨折诊断相对容易。但因局部或全身疾病引起的病理性骨折,部分患者在骨折前还存在长期的颌骨膨隆、牙齿松动、软组织瘘管、骨折区域的软硬组织新生物等,需引起临床医师重视。

2.3 治疗

现代医学实践已经证明,对于颌面部创伤导致的骨折,切开复位内固定,即坚固内固定手术治疗是主流和首选方法,可以说是金标准。但对于颌骨病理性骨折,治疗可谓复杂并具有挑战性。因为其病因多种多样,患者局部和全身存在的疾病会对正常骨愈合产生影响。

病理性骨折的治疗需要按照病因制定不同的治疗方案。其开放性手术治疗手段从传统的切开复位内固定,到截骨不修复、单纯重建板修复,到血管化游离骨瓣修复都有采用。需因患者病情个性化实施。总体原则是先行病理治疗(恶性或良性),骨折治疗取决于由此产生的骨缺损^[17]。

年轻健康,骨骼正常,骨折模式简单,并且有足够支撑可以在复位后实现良好的骨对位者,常规切开复位内固定甚至闭合复位可以实现骨的快速愈合。如果没有正常愈合可能性,则将病变骨彻底切除,缺损根据具体病变类型,可按照颌骨重建手段原则,行同期或二期重建^[17]。

角化囊肿导致的病理性骨折,尚无足够数量病例进行循证医学意义上的治疗方案选择。目前为止,多采用开放性手术。本文患者采用了颌间牵引保守治疗的方法。其原因为:1)患者自身意愿不能接受开放性手术;2)结合患者骨折及病变

类型(良性病变且骨折断端移位和缺损不多),更加偏向于保守治疗方法。该方法在一定程度上可以减少并发症的产生,减小患者创伤和花费,但需要患者有较高的依从性和耐受性,可以配合较长时程的牙弓夹板颌间弹性牵引。

总之,本文采用保守治疗方法对1例多发角化囊肿术后病理性骨折的患者进行治疗,效果肯定。该患者还需要5年内的随访,以监测可能出现的复发。希望该病例的诊疗经过,可以为临床医师提供有价值的参考。

利益冲突声明:作者声明本文无利益冲突。

[参考文献]

- [1] Boffano P, Rocca F, Gallesio C, et al. Pathological mandibular fractures: a review of the literature of the last two decades[J]. Dent Traumatol, 2013, 29(3): 185-196.
- [2] Horta R, Monteiro D, Neto T, et al. Microsurgical reconstruction for radiation- and bisphosphonate-induced mandible osteonecrosis based on patient-specific physiopathologic mechanisms[J]. J Craniofac Surg, 2014, 25(5): 1793-1796.
- [3] Boffano P, Rocca F, Gallesio C, et al. Surgical management of pathologic mandibular fractures[J]. J Craniofac Surg, 2012, 23(6): e560-e562.
- [4] 苏屹坤,王婧,张桐菲,等. 4 181例牙源性肿瘤及囊肿临床病理分析[J]. 中华口腔医学杂志, 2019, 54(8): 546-552.
Su YK, Wang J, Zhang TF, et al. Odontogenic tumors and odontogenic cysts: a clinical and pathological analysis of 4 181 cases[J]. Chin J Stomatol, 2019, 54(8): 546-552.
- [5] Shear M. Odontogenic keratocysts: clinical features[J]. Oral Maxillofac Surg Clin North Am, 2003, 15(3): 335-345.
- [6] Menon S. Keratocystic odontogenic tumours: etiology, pathogenesis and treatment revisited[J]. J Maxillofac Oral Surg, 2015, 14(3): 541-547.
- [7] Antonoglou GN, Sándor GK, Koidou VP, et al. Non-syndromic and syndromic keratocystic odontogenic tumors: systematic review and meta-analysis of recurrences[J]. J Craniomaxillofac Surg, 2014, 42(7): e364-e371.
- [8] Borghesi A, Nardi C, Giannitto C, et al. Odontogenic keratocyst: imaging features of a benign lesion with an aggressive behaviour[J]. Insights Imaging, 2018, 9(5):

- 883-897.
- [9] 陶谦, 何悦, 刘冰, 等. 开窗治疗颌骨囊性病变的专家共识[J]. 口腔疾病防治, 2020, 28(2): 69-72.
Tao Q, He Y, Liu B, et al. Expert consensus on marsupialization of cystic lesions of the jaw[J]. J Prev Treat Stomatol Dis, 2020, 28(2): 69-72.
- [10] 赵熠, 陈刚, 刘冰, 等. 牙源性角化囊肿袋形术后的骨形成与改建[J]. 口腔医学研究, 2013, 29(11): 1062-1064.
Zhao Y, Chen G, Liu B, et al. Characteristics of the bone formation and remodelling following marsupialization of jaw odontogenic keratocysts[J]. J Oral Sc Res, 2013, 29(11): 1062-1064.
- [11] Ezsiás A, Sugar AW. Pathological fractures of the mandible: a diagnostic and treatment dilemma[J]. Br J Oral Maxillofac Surg, 1994, 32(5): 303-306.
- [12] Matisse JL, Beto LM, Fantasia JE, et al. Pathologic fracture of the mandible associated with simultaneous occurrence of an odontogenic keratocyst and traumatic bone cyst[J]. J Oral Maxillofac Surg, 1987, 45(1): 69-71.
- [13] 江中军, 李瑞芳, 赵熠. 牙源性角化囊肿刮除术后下颌骨病理性骨折2例报告[J]. 临床口腔医学杂志, 2014, 30(9): 539-540.
Jian ZJ, Li RF, Zhao Y. Pathological fracture of mandible after curettage of odontogenic keratocyst: report of 2 cases[J]. J Clin Stomatol, 2014, 30(9): 539-540.
- [14] 周景兰, 焦顺利, 陈晓华, 等. 复发性牙源性角化囊肿刮除及冷冻治疗的效果评价[J]. 上海口腔医学, 2005, 14(5): 476-478.
Zhou JL, Jiao SL, Chen XH, et al. Treatment of recurrent odontogenic keratocyst with enucleation and cryosurgery: a retrospective study of 10 cases[J]. Shanghai J Stomatol, 2005, 14(5): 476-478.
- [15] Cope MR. Spontaneous fracture of an atrophic edentulous mandible treated without fixation[J]. Br J Oral Surg, 1982, 20(1): 22-30.
- [16] 沈海平, 周建国, 沈燕, 等. 下颌阻生第三磨牙与下颌骨角区骨折关系的临床观察[J]. 实用口腔医学杂志, 2003, 19(6): 636.
Shen HP, Zhou JG, Shen Y, et al. Clinical observation of the relationship between mandibular impacted third molar and mandibular angular region fracture[J]. J Pract Stomatol, 2003, 19(6): 636.
- [17] Coletti D, Ord RA. Treatment rationale for pathological fractures of the mandible: a series of 44 fractures[J]. Int J Oral Maxillofac Surg, 2008, 37(3): 215-222.

(本文编辑 杜冰)

《口腔种植机器人手术：实战技巧与典型案例解析》出版发行

书籍名称：口腔种植机器人手术：实战技巧与典型案例解析

主编：徐淑兰，杨烁

出版日期：2024年2月

出版社：人民卫生出版社

内容简介：本书是一本关于口腔种植机器人的专业书籍。随着人工智能和产业机器人的迅速发展，医疗机器人在疾病诊疗和操作当中的应用场景和前景越来越受到广泛关注和重视。本书内容包括口腔种植手术机器人概述、原理和结构以及临床标准流程等，旨在为读者提供全面的理论指导，以期帮助读者更好地理解 and 掌握口腔种植机器人手术的知识体系。同时通过经典机器人种植手术案例的剖析（包括不翻瓣手术、窄间隙种植、即刻种植、上颌窦提升手术联合自体骨移植、上颌牙列双层皮质骨固位种植即刻修复、下颌牙列即刻种植修复及全牙弓机器人种植流程等），帮助读者从临床实际应用中了解种植机器人手术在不同病例中的优势和挑战。本书分享了口腔种植机器人手术的实战技巧和经典案例解析，并对口腔种植机器人手术的现状与展望进行了分析，为读者提供了非常宝贵的知识。

