

Malin V. Jonsson, Sigbjørn Løes, Anne Christine Johannessen, Stein Johannessen og Ketil Moen

Kasusrapport om en sjelden variant av den vanligste odontogene tumor

Diagnostikk og behandling av et ameloblastisk fibroodontom

Ameloblastisk fibroodontom er en uvanlig variant av den vanligste odontogene tumoren, odontom. Kasusrapporten beskriver diagnostikk og behandling av et ameloblastisk fibroodontom som ble oppdaget hos en 10 år gammel jente i forbindelse med planlegging av kjeveortopedisk behandling. Tumoren hadde displasert tannanlegg 17.

Oodontom er den vanligste odontogene tumoren og forekommer ofte sammen med tenner som ikke erupterer (1). Ameloblastisk fibroodontom er en sjelden odontogen tumor som terminologisk er en kombinasjon av ameloblastisk fibrom og komplekst odontom. Radiologisk kjennetegnes odontom av en røntgentett del med emalje-, dentin-, pulpa- og sementkomponenter, omgitt av en tynn radiolucent sone som indikerer en bløtvevskapsel. Et typisk ameloblastisk fibroodontom kjennetegnes av et radiolucent område som indikerer bløtvev og varierende innslag av radiopake strukturer som indikerer hårdvevskomponenter og dermed kan ligne et komplekst odontom. Tilsvarende består det histologiske bilde av en bindevevskomponent med et ungt myksomatøst stroma og øyer og strenger av ameloblastomlignende epitel og noen mer eller mindre tannlignende elementer (2, 3). Et odontom vil vedvare dersom det ikke fjernes, men øker sjelden i størrelse etter at tannutviklingen er avsluttet, mens et

ameloblastisk fibroodontom i kraft av sin bløtvevskomponent vil inneha et større potensiale for videre vekst.

Kasus

Pasienten, en 10 år gammel jente, ble henvist fra sin kjeveortoped til Seksjon for oral kirurgi og oral medisin, Institutt for klinisk odontologi, for vurdering av en røntgentett struktur i regio 17. Ved undersøkelse var ansiktet symmetrisk, og sensorikk og motorikk i ansiktet var normal. Det var, og hadde til dette tidspunkt vært, normal luftføring i begge nesekaviteter, og pasienten hadde ikke vært plaget med bihulebetennelser. Intraoralt var det ingen påvisbare hevelser eller smerter. Palpasjon av overgangsfolden i området viste normal kontur. Tann 17 og tann 27 var ikke frembrutt.

Henvissende kjeveortoped hadde utført en OPG undersøkelse (figur 1) i forbindelse med planlegging av kjeveortopedisk behandling av pasientens overbitt. På OPG kunne ses en retinert og displasert tann 17 og en røntgentett struktur projisert over høyre sinus maxillaris. Pasienten ble deretter henvist videre til Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi, Universitetet i Bergen, for radiologisk utredning av retinert tann 17 og en sirkulær, sklerotisk benforandring i regio høyre sinus maxillaris. Det ble besluttet å foreta en CT-undersøkelse for kartlegging av prosessens størrelse og relasjon til nabostrukturer, samt vurdering av behandlingsvalg og oppfølging.

Radiologisk undersøkelse

En CT-undersøkelse av overkjeven ble utført ved Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi. Undersøkelsen viste en velavgrenset, men uregelmessig røntgentett struktur med tetthet tilsvarende emalje og dentin (figur 2 a-c). Strukturen hadde en stedvis noe uregelmessig begrensning og var omgitt av en radiolucent sone. Perifert for dette kunne en tynn veldefinert sklerotisk sone ses.

Med unntak av noe luft fortil, medialt og kranialt fylte strukturen den øvrige del av høyre sinus maxillaris. Inne i prosessen, anteriort mot fremre sinusvegg, lå retinert og displasert tann 17 med kronen i posterior retning (figur 2 a). Prosessen samt tann 17 nådde opp til laterale del av orbita-

Forfattere

Malin V. Jonsson, Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi, Universitetet i Bergen

Sigbjørn Løes, Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for oral medisin og oral kirurgi, Universitetet i Bergen og Kjevekirurgisk avdeling, Haukeland Universitetssykehus, Bergen

Anne Christine Johannessen, Klinisk institutt 1 – Gades laboratorium for patologi og Avdeling for patologi, Haukeland Universitetssykehus, Bergen

Stein Johannessen, Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi, Universitetet i Bergen

Ketil Moen, Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for oral medisin og oral kirurgi, Universitetet i Bergen og Kjevekirurgisk avdeling, Haukeland Universitetssykehus, Bergen



Figur 1. OPG fra henvisende tannlege viser en fortetning som projiseres over høyre sinus maxillaris og rundt retinert og displasert tann 17.

gulvet (figur 2 b). Det var antydning til ekspansjon av laterale vegg av høyre sinus maxillaris (figur 2 c) og tegn til et lite gjennombrudd av posteriore sinusvegg (figur 2 a).

Røntgenfunn ble vurdert til å være forenlig med et stort, mulig komplekst odontom som fylte ut vesentlige deler av høyre sinus maxillaris. Tann 17 var retinert og displasert i fremre del av prosessen.

Kirurgisk behandling

Til tross for at den aktuelle lesjon ut fra kliniske og radiologiske funn ble antatt å være benign, ble det foretatt en fullstendig kirurgisk fjerning ved kjevekirurgisk avdeling, Haukeland universitetssykehus. Grunnet pasientens alder og lesjonens størrelse og lokalisasjon ble operasjonen gjennomført i generell anestesi med nasal intubasjonsnarkose. Det ble lagt en skarp incisjon i overgangsfolden posterior i molarområdet. En åpning inn til høyre sinus maxillaris ble så preparert. Tumoren ble da klart synlig, og man kunne konstatere at prosessen ikke vokste inn i omliggende strukturer. Den var imidlertid for stor til å fjernes i ett stykke, og

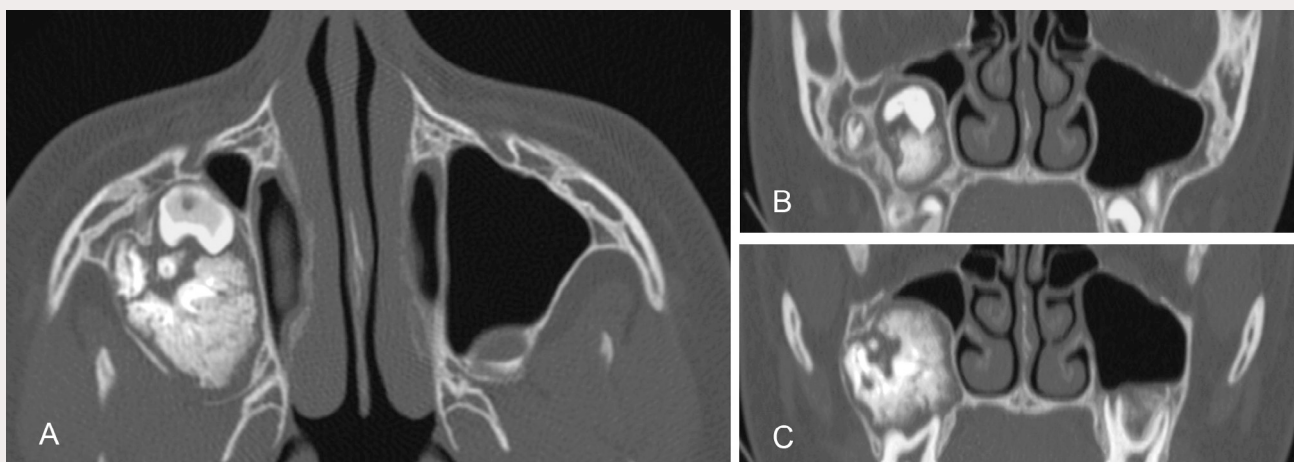
tumor ble derfor fjernet i deler (figur 3) og sendt til Avdeling for patologi, Haukeland universitetssykehus, for histopatologisk undersøkelse. Retinert og displasert tann 17 ble fjernet i samme sesjon. Pasienten hadde et normalt og ukomplisert postoperativt forløp. Etter 12 måneder er det ikke sett kliniske eller radiologiske tegn til residiv av tilstanden (Figur 4), og pasienten blir fulgt videre opp av egen tannlege på sitt hjemsted.

Histopatologisk undersøkelse

Vevet ble dekalisert før histopatologisk undersøkelse. Mikroskopisk var tumorvevet velavgrenset med en sone av bløtvev som omga hardvevet. Hardvevet besto av irregulære masser av dentin og rester etter emaljeprismer samt mer irregulært hardvev uten så regelmessig oppbygging, sannsynlig sement. Vekstmønsteret viste en sammenhengende perifer hardvevssone, mens det i de mer sentrale områdene var mer tannlignende elementer der hardvevet var organisert med emalje ytterst og bløtvev tilsvarende pulpa sentralt. I disse områdene var der bare sparsomt med fibrøst stroma. Andre områder inneholdt bløtvev i form av et ungt myxomatøst bindevev tilsvarende reticulum stellate i tannutviklingen (Figur 5). Der var områder med odontogent epitel med et karakteristisk ameloblastomlignende utseende, med polariserte kjerner bort fra basalmembranen. Forandringene ble oppfattet som et ameloblastisk fibroodontom. Der var ingen holdepunkter for malignitet.

Diskusjon

I vår kasuistikk belyses en uvanlig variant av odontom, der emalje- og dentinkomponenter ble påvist radiologisk, og histologisk analyse av vevsprøver avslørte en ameloblastomlignende komponent. Radiologisk fremstår ameloblastisk fibroodontom vanligvis som en velavgrenset oppklaring med en sentral røntgentett



Figur 2. A–C. Representative snitt fra radiologisk undersøkelse (MDCT) foretatt ved Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi. A: Aksialt snitt. Velavgrenset men uregelmessig røntgentett struktur med tetthet tilsvarende emalje og dentin som med unntak av noe luft fortil, medialt og kranialt fyller øvrige del av høyre sinus maxillaris. Tann 17 ligger retinert og displasert inne i prosessen, anterior mot fremre sinusvegg og med kronen i posterior retning. Tegn til lite gjennombrudd av posteriore vegg av høyre sinus maxillaris. B: Coronalt snitt. En del av prosessen og tann 17 når opp til laterale del av orbitagulvet. C: Coronalt snitt, lenger posterior enn (B). Strukturen hadde en stedvis noe uregelmessig begrensning og var omgitt av en radiolucent sone. Her synes noe luft kranialt, ellers fyller strukturen store deler av høyre sinus maxillaris, med antydning til ekspansjon av laterale sinusvegg. Foto: Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi.



Figur 3. Operasjonspreparat. Lesjonen måtte deles i flere deler og kunne deretter fjernes i sin helhet, sammen med tann 17. Foto: Kjevekirurgisk avdeling, Haukeland universitetssykehus.

kanne være benigne neoplasmer som komplekst odontom eller adenomatoid odontogen tumor, og hos eldre pasienter kalsifiserende epitelial odontogen tumor (CEOT), også kjent som Pindborg tumor (1) som svært sjelden forekommer hos individer under 40 år (6). Tydelige emalje- og dentinkomponenter samsvarte i vårt tilfelle med et komplekst odontom, og CEOT og adenomatoid odontogen tumor var dermed lite sannsynlige differensialdiagnoser radiologisk.

Lesjonen var i vårt tilfelle velavgrenset og omgitt av en tynn radiolucent sone og utenfor dette en tynn veldefinert sklerotisk sone, og fylte nesten hele høyre sinus maxillaris. Dersom forandringen hadde hatt vært mer radiolucent og ligget lengre anterior i kjeven ville kalsifiserende cystisk odontogen tumor ha representert en mulig differensialdiagnose; omtrent 70% av denne cystiske tumoren opptrer i maxilla, og 25% av det totale antallet er observert ekstra-ossøst (6, 7). Kalsifiserende cystisk odontogen tumor forekommer imidlertid oftest hos pasienter over 50 år, men er også beskrevet hos en 36 år gammel kvinne, der cysten fylte ut sinus maxillaris og resorberte røttene til nærliggende tenner (8).

Radiologiske funn viste at tann 17 var innkapslet i tumorvev og displasert til anteriore del av høyre sinus maxillaris. Et flertall odontogene utviklingslesjoner, deriblant CEOT, odontom, ameloblastisk fibrom og adenomatoid odontogen tumor er kjent for å kunne displasere tenner og tannanlegg (1), i tillegg til odontogene cyster og tumores som follikulær cyste og keratocystisk odontogen tumor. Bløtdelskomponenten i tumor tilsvarer ameloblastisk fibrom, med potensiale for både residiv og malign utvik-



Figur 4. Tegn til residiv kan ikke påvises på OPG ca. 1 år etter operasjon.

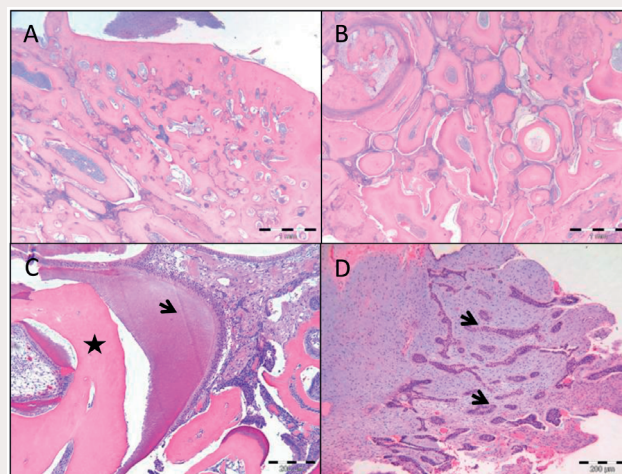
struktur av varierende form og størrelse, og noen ganger tannlignende strukturer (4, 5). Radiologiske funn indikerer da en større bløtvevskomponent enn i vårt tilfelle. Nærliggende radiologiske diagnoser hos yngre individer vil da

ling, selv om det sistnevnte er svært lite sannsynlig (9, 10). Vi kan i dette tilfellet se betydningen av histopatologisk vevsundersøkelse.

Residiv er satt i sammenheng med ufullstendig fjerning initialt (11). Det å beholde tenner kan bidra til ufullstendig fjerning av tumor (12–14), og residiv er beskrevet hos en ni år gammel pasient med ameloblastisk fibroodontom der et kaudalt displasert tannanlegg ikke ble fjernet (15). Konsensus om å fjerne eller ikke fjerne assosierte tannanlegg finnes imidlertid ikke per i dag (16, 17) og det kan se ut til at residiv hovedsakelig er et resultat av ufullstendig kirurgisk fjerning der rester av tumor persisterer i reseksjonen eller relatert til den involverte tannen. Forandringer i histopatologisk mønster med et mer uorganisert stroma og uorganiserte odontogene elementer observeres ofte i disse tilfellene (13).

Preoperativ snittbildeundersøkelse, som i vårt tilfelle med MDCT (18), eller CBCT (19), bidrar til kartlegging av lokalisering og avgrensningene av tumor i forhold til nabostrukturer og legger forholdene til rette for at hele tumor blir fjernet. Selv om ameloblastisk fibroodontom i stor grad har tydelig begrensning mot omliggende vev kan store tumorer likevel være vanskelig å fjerne da de kan være svært kompakte. Tannanlegg som man lar stå igjen kan spontaneruptere (20), men i vårt tilfelle var tannanlegg 17 displasert og innkapslet i tumor og ble preoperativt vurdert som tapt. Residiv er ikke påvist i oppfølgingsperioden.

Diagnostiske metoder og behandlingsvalg samsvarer med rapporterte funn i et tilsvarende kasus, en syv år gammel jente, der man etter 11 måneder ikke påviste residiv (18). Konservativ kirurgisk behandling i form av enukleasjon og kyrretasje vil være foretrukket behandling ved ameloblastisk fibroodontom (13, 18, 20), da slik behandling også fungerer kurativt. CT-undersøkelse hadde i vårt tilfelle påvist både ekspansjon og en liten perforasjon av sinus maxillaris posteriore vegg, og en videre vekst i superior retning ville på sikt kunne påvirke øyeeplet. Selv med



Figur 5. A: Histologiske bilder viser dekalsinert vev med en ytre sone av hardvev og B: en mer sentral sone med tverrsnitt av mer eller mindre tannlignende elementer. C: Nærbilde av et tverrsnitt av liten tann med rester etter emalje (pil) og dentin (stjerne). D: Et ungt myxomatøst cellerikt bindevev med øyer og strenger av odontogent epitel med ameloblastomlignende utseende (piler).

lesjonens størrelse og lokalisasjon, kunne fullstendig ekstirpasjon gjøres med intraoral tilgang uten spesielle kirurgiske risikomomenter utenom narkose i et relativt lett tilgjengelig område. Kirurgi kunne dermed begrenses til ett inngrep.

Konklusjon

Ameloblastisk fibroadontom er en sjelden odontogen tumor som oftest forekommer hos barn og unge, og assosiert med retinerte tenner/tannanlegg. Tumor kan forårsake lokal ekspansjon av kjeven, men er som oftest asymptomatisk og oppdages tilfeldig i forbindelse med annen radiologisk undersøkelse. Større lesjoner kan med fordel kartlegges med CT for bidra til fullstendig fjerning og dermed forebygge residiv.

Takk

Takk til kjeveortoped Signe Storesund, Haugesund som sjenerøst har delt pre- og postoperativt bildemateriale.

Referanser

1. White SC, Pharoah MJ. Benign tumors of the jaws. Oral radiology Principles and interpretation. 6th ed. St. Louis, Missouri: Mosby Elsevier; 2009. p. 366–404.
2. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, editors. Lyon: IARC Press; 2005.
3. Philipsen HP, Reichart PA, Praetorius F. Mixed odontogenic tumours and odontomas. Considerations on interrelationship. Review of the literature and presentation of 134 new cases of odontomas. Oral oncol. 1997; 33(2): 86–99.
4. Nascimento JE, Araujo LD, Almeida LY, De Paula AM, Bonan PR. Ameloblastic fibro-odontoma: a conservative surgical approach. Med oral patol oral. 2009; 14(12): e654–7.
5. Reis SR, de Freitas CE, do Espirito Santo AR. Management of ameloblastic fibro-odontoma in a 6-year-old girl preserving the associated impacted permanent tooth. J oral sci. 2007; 49(4): 331–5.
6. Marx RE, Stern D. Oral and maxillofacial pathology. A rationale for diagnosis treatment. 2nd ed: Quintessence Publishing Co, Inc.; 2011.
7. Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK. In: Regezi JA, Sciubba JJ, Jordan RCK, editors. Oral Pathology: Clinical Pathologic Correlations. 4th ed. St Louis, Missouri: SAUNDERS; 2003.
8. Moen K, Lybak S, Jonsson HN, Seland H, Størksen K, Johannessen AC, et al. Orbital reconstruction after resection of giant calcifying

- cystic odontogenic tumor of mid-face. Journal of oral and maxillofacial surgery: J Oral Maxillofac Surg. 2012 Jan; 70(1): 233–41.
9. Chen Y, Wang JM, Li TJ. Ameloblastic fibroma: a review of published studies with special reference to its nature and biological behavior. Oral oncol. 2007; 43(10): 960–9.
10. Gyulai-Gaál S, Takacs D, Szabo G, Suba Z. Mixed odontogenic tumors in children and adolescents. J Craniofac Surg. 2007 Nov; 18(6): 1338–42.
11. Chen Y, Li TJ, Gao Y, Yu SF. Ameloblastic fibroma and related lesions: a clinicopathologic study with reference to their nature and interrelationship. J Oral Pathol Med. 2005 Nov; 34(10): 588–95.
12. Chang H, Precious DS, Shimizu MS. Ameloblastic fibro-odontoma: a case report. J Can Dent Assoc. 2002 Apr; 68(4): 243–6.
13. Friedrich RE, Siegert J, Donath K, Jakel KT. Recurrent ameloblastic fibro-odontoma in a 10-year-old boy. J Oral Maxillofac Surg. 2001 Nov; 59(11): 1362–6.
14. Miller AS, Lopez CF, Pullon PA, Elzay RP. Ameloblastic fibro-odontoma. Report of seven cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1976 Mar; 41(3): 354–65.
15. Furst I, Pharoah M, Phillips J. Recurrence of an ameloblastic fibro-odontoma in a 9-year-old boy. J Oral Maxillofac Surg. 1999 May; 57(5): 620–3.
16. Pontes HA, Pontes FS, Lameira AG, Salim RA, Carvalho PL, Guimaraes DM, et al. Report of four cases of ameloblastic fibro-odontoma in mandible and discussion of the literature about the treatment. J Craniomaxillofac Surg. 2012; 40(2): e59–63.
17. Santos Tde S, de Carvalho RW, Avelar RL, Dias de Oliveira e Silva E, Frota R, Anjos ED. Ameloblastic fibro-odontoma in children: report of 2 cases. J Dent Child (Chic). 2011 Sep-Dec; 78(3): 173–7.
18. Zouhary KJ, Said-Al-Naief N, Waite PD. Ameloblastic fibro-odontoma: expansile mixed radiolucent lesion in the posterior maxilla: a case report. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod. 2008; 106(4): e15–21.
19. Lucio PS, Cavalcante RB, Maia RN, Santos ES, Godoy GP. Aggressive ameloblastic fibro-odontoma assessment with CBCT and treatment. European archives of paediatric dentistry. Eur Arch Paediatr Dent. 2013; 14(3): 179–84.
20. Okura M, Nakahara H, Matsuya T. Treatment of ameloblastic fibro-odontoma without removal of the associated impacted permanent tooth: report of cases. J Oral Maxillofac Surg. 1992; 50(10): 1094–7.

Adresse: Malin V. Jonsson, Institutt for klinisk odontologi – Seksjon for kjeve- og ansiktsradiologi, Årstadveien 19, 5009 Bergen. E-post: malin.jonsson@iko.uib.no