

4. Ευμεγέθες Αμελοβλάστωμα της Άνω Γνάθου: Περιγραφή Περίπτωσης.

Ζήζη-Σερμπετζόγλου Α.¹, Πετρακοπούλου Ν.¹, Τεπελένης Ν.¹, Σαββαΐδου Β.¹, Μούστου Ε., Αντωνιάδου Α.².

¹ Παθολογοανατομικό Εργαστήριο, Γ.Π.Ν.Π.«ΤΖΑΝΕΙΟ»

² Οδοντιατρικό Τμήμα, Γ.Π.Ν.Π.«ΤΖΑΝΕΙΟ»

ΠΕΡΙΛΗΨΗ

Το αμελοβλάστωμα είναι ένα ασύνηθες καλόηθες νεόπλασμα. Αποτελεί το 1% περίπου του ολικού αριθμού των νεοπλασμάτων της στοματικής κοιλότητας και το 11% των οδοντογενών όγκων. Ιστογενετικά προέρχεται από το αρχέγονο οδοντογενές επιθήλιο. Η βιολογική του συμπεριφορά χαρακτηρίζεται από αργή ανάπτυξη, τοπική επιθετικότητα, αυξημένη συχνότητα υποτροπών και το ενδεχόμενο κακοήθους εξαλλαγής.

Η περίπτωση μας αφορά άνδρα ηλικίας 43 ετών ο οποίος προσήλθε στο Οδοντιατρικό Τμήμα του Νοσοκομείου μας για εξέγκωση του στοματικού βλεννογόνου στην περιοχή του σωφρονιστήρα της άνω γνάθου. Ακολούθησε αφαίρεση της βλάβης και η ιστολογική εξέταση έδειξε εικόνα αμελοβλαστώματος. Ένα χρόνο μετά το χειρουργείο ο ασθενής παραμένει ελεύθερος νόσου.

Λέξεις κλειδιά: αμελοβλάστωμα, επιθηλιακοί οδοντογενείς όγκοι.

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Το αμελοβλάστωμα είναι ένα ασύνηθες οδοντογενές νεόπλασμα [1]. Αποτελεί το 11% των οδοντογενών όγκων και το 1% του συνολικού αριθμού των νεοπλασμάτων της στοματικής κοιλότητας [2-3]. Ιστογενετικά προέρχεται από το αρχέγονο οδοντογενές επιθήλιο [1,4]. Εμφανίζεται συνήθως κατά την 3η-5η δεκαετία της ζωής με την ίδια συχνότητα και στα δύο φύλα, έχοντας μία ελαφρά υπεροχή προς τους άνδρες [5]. Η πλέον συνηθής εντόπιση είναι αυτή της κάτω γνάθου και ιδιαίτερα η περιοχή των γομφίων [6]. Σύμφωνα με τον Παγκόσμιο Οργανισμό Υγείας το αμελοβλάστωμα [7] ταξινομείται στους εξής τύπους: συμπαγής/πολυκυστικός, εξωοστικός/περιφερικός, δεσμοπλαστικός και μονοκυστικός. Έχουν όμως περιγραφεί και σπανιότερες μορφές όπως είναι το οδοντινοαδαμαντινοβλάστωμα [8] και το αμελοβλάστωμα εκ διαυγών κυττάρων [9]. Η βιολογική συμπεριφορά αυτού του όγκου χαρακτηρίζεται από αργή ανάπτυξη, τοπική επιθετικότητα, αυξημένη συχνότητα υποτροπών και το ενδεχόμενο κακοήθους εξαλλαγής [8]. Η θεραπευτική αγωγή είναι κατά κύριο λόγο χειρουργική.

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Άνδρας, ηλικίας 43 ετών παραπέμφθηκε από τον Οδοντίατρο του στο Τακτικό Ιατρείο του Οδοντιατρικού Τμήματος του ΓΝΠ «Τζάνειο» για

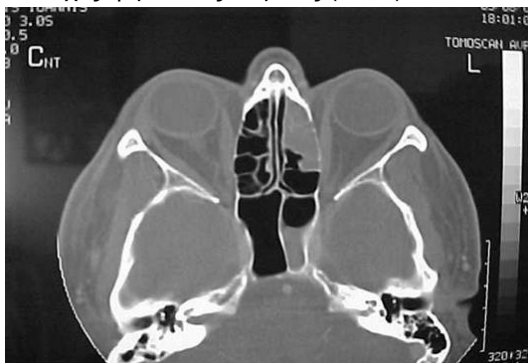
εξέγκωση του στοματικού βλεννογόνου στην περιοχή του σωφρονιστήρα της άνω γνάθου αριστερά, η οποία ανακαλύφθηκε τυχαία κατά τον κλινικό έλεγχο (εικ. 1). Το εν λόγω δόντι είχε αφαιρεθεί πριν από δέκα χρόνια. Ο ασθενής στο ιστορικό του ανέφερε ρινική συμφόρηση και εκροή δύσσοσμων εκκρίσεων από τον σύστοιχο ρώθωνα.



Εικ. 1. Κλινική εικόνα βλάβης. Εξέγκωση στην περιοχή του σωφρονιστήρα της άνω γνάθου αριστερά.

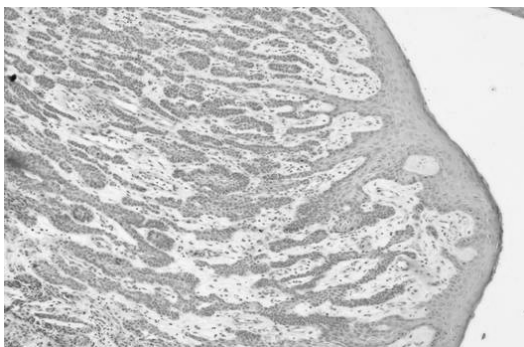
Ο απεικονιστικός έλεγχος με πανοραμική ακτινογραφία έδειξε την παρουσία σαφώς περιγεγραμμένης πολύχρωρης διαύγασης που φάνοταν να εκτείνεται από την περιοχή του σωφρονιστήρα και να καταλαμβάνει τμήμα του σύστοιχου ιγμορείου το οποίο στην υπόλοιπη έκτασή του παρουσίαζε εικόνα σκίασης. Ο περαιτέρω έλεγχος με αξονική τομογραφία έδειξε την παρουσία χωροκατακτητικής εξεργασίας η

οποία καταλάμβανε το εξ ολοκλήρου αριστερό ιγμόρειο και επεκτείνονταν έως το ρινικό διάφραγμα διηθώντας τη σύστοιχη μέση ρινική κόγχη. Προ τα πάνω η βλάβη έφθανε μέχρι το έδαφος του οφθαλμικού κόγχου, χωρίς όμως να το διηθεί απεικονιστικά, ενώ εκτείνονταν και στις σύστοιχες ηθμοειδείς κυψέλες (εικ. 2).

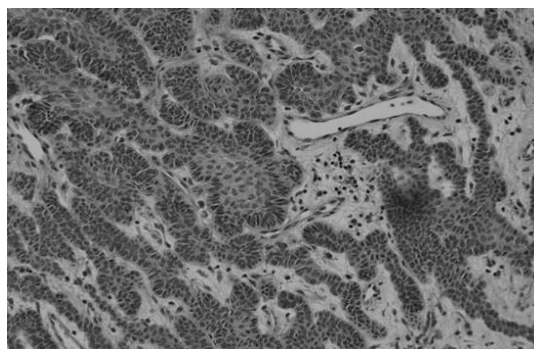


Εικ. 2. Αξονική τομογραφία σε στεφανιαία τομή. Η βλάβη επεκτείνεται προς τα πάνω μέχρι το έδαφος του οφθαλμικού κόγχου τον οποίο δε φαίνεται να διασπά.

Με βάση τα κλινικά σημεία και τα ακτινογραφικά ευρήματα στη διαφορική διάγνωση συζητήθηκαν οι κακοήθεις όγκοι του αδενικού ιστού, το αμελοβλάστωμα και το αιμαγγείωμα. Ακολούθως έγινε βιοψία υπό τοπική αναισθησία όπου ελήφθησαν βιοψίες και στάλθηκαν στο Παθολογοανατομικό εργαστήριο του ΓΝΠ «Τζάνειο». Το βιοπτικό υλικό αποτελείτο από πολλαπλά ιστοτεμάχια, συνολικού όγκου 5cc τα οποία είχαν χροιά λευκωπή και σύσταση μαλθακή. Μικροσκοπικά τα ιστοτεμάχια αφορούσαν τμήματα επιθηλιακού οδοντογενούς νεοπλασματος τα επιμέρους μορφολογικά χαρακτηριστικά του οποίου είναι συμβατά με αμελοβλάστωμα (εικ. 3,4).



Εικ. 3. Εικόνα αμελοβλαστώματος. Χρώση αιματοξυλίνης ηωσίνης (H&E x 100).



Εικ. 4. Εικόνα αμελοβλαστώματος. Χρώση αιματοξυλίνης ηωσίνης (H&E x 400).

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Τον όρο 'αδαμαντίνωμα' εισήγαγε ο Malassez το 1885 για να περιγράψει έναν οδοντογενή όγκο ο οποίος αναγνωρίστηκε από τον Cusack το 1827 και περιγράφηκε λεπτομερώς από τον Falckson. Αργότερα οι Ivey & Churgchill το 1930 μετονόμασαν τον όγκο αυτό σε αμελοβλάστωμα¹. Το αμελοβλάστωμα είναι ένας οδοντογενής όγκος επιθηλιακής προέλευσης. Ο μηχανισμός της ιστογένεσής του δεν έχει πλήρως καθορισθεί. Θεωρητικά ο όγκος μπορεί να προέρχεται από τα εξής επιθηλιακά στοιχεία που αντιστοιχούν στα αρχικά στάδια της οδοντογένεσης όπως, **1)** από τα υπολείμματα της οδοντικής ταινίας, **2)** από το λεπυθέν όργανο της αδαμαντίνης (και κατ' επέκταση από το επενδυτικό επιθήλιο οδοντοφόρων κύστεων), **3)** από τα υπολείμματα του Malassez, **4)** από τα κύτταρα της βασικής στοιβάδος του καλυπτικού επιθηλίου [1,3,4]. Επικρατέστερη είναι η θεωρία προέλευσής τους από τα επιθηλιακά υπολείμματα της οδοντικής ταινίας. Επίσης έχει αναφερθεί η δυνατότητα ανάπτυξης του όγκου σε τοίχωμα οδοντοφόρων κύστεων. Οι Stanley και Diebl αναφέρουν ότι σε σύνολο 641 περιπτώσεων το 17% των όγκων αυτών σχετίζονταν με οδοντοφόρους κύστες [10]. Ως αιτιολογικοί παράγοντες έχουν ενοχοποιηθεί η εξαγωγή, το τραύμα, η μόλυνση, η φλεγμονή οδόντος, διαταραχές της θρέψης και ιογενής μόλυνση χωρίς όμως κανείς από τους παράγοντες αυτούς να έχει επιβεβαιωθεί [1,2]. Προσβάλλει συνήθως ενήλικες μεταξύ τρίτης και πέμπτης δεκαετίας της ζωής, μπορεί όμως να εμφανισθεί σε κάθε ηλικία. Εμφανίζεται περίπου με την ίδια συχνότητα και στα δύο φύλα. Εντοπίζεται συνθέστερα στην κάτω γνάθο απ' ότι στην άνω και ιδιαίτερα στην οπίσθια περιοχή της [5] (περιοχή των γομφίων, της γωνίας και του κλάδου). Σπανιότερα ο όγκος αναπτύσσεται έξω από τα

οστά των γνάθων κυρίως στα ούλα. Ακτινολογικά εμφανίζεται ως εκσεσημασμένη λυτική αλλοίωση[12]. Ιστολογικά το αμελοβλάστωμα διακρίνεται σε έξι τύπους: *το θυλακιώδη, το δικτυωτό, τον ακανθωτό, τον κοκκιοκυτταρικό, το βασικοκυτταρικό και το δεσμοπλαστικό.*

α) Ο *θυλακιώδης τύπος* αποτελεί το 33,9% των περιπτώσεων και χαρακτηρίζεται από την παρουσία νησίδων ποικίλου μεγέθους, οι οποίες αποτελούνται από πολυεδρικά ή γωνιώδη κύτταρα. Τα κύτταρα αυτά προσομοιάζουν με αστεροειδή δικτυωτά κύτταρα και καταλαμβάνουν την κεντρική μοίρα των νησίδων. Περιφερικά αφορίζονται από ένα στοιχείο κυβικών ή κυλινδρικών κυττάρων όμοια με αδαμαντινοβλάστες [1,6].

β) Ο *δικτυωτός τύπος* αποτελεί το 36,2% των περιπτώσεων, εντοπίζεται συνήθως στην άνω γνάθο και χαρακτηρίζεται από την παρουσία αναστομούμενων χορδών. Οι κυτταρικές στοιβάδες που απαρτίζουν αυτές τις χορδές είναι ίδιες με αυτές του θυλακιώδους τύπου, με την διαφορά όμως ότι τα κύτταρα που βρίσκονται κεντρικά καταλαμβάνουν μικρή έκταση και αρκετές φορές μπορεί να απουσιάζουν [1,2,13].

γ) Ο *ακανθωτός τύπος* αποτελεί το 11,3% των περιπτώσεων και χαρακτηρίζεται από την παρουσία πλακώδους μεταπλάσεως των κεντρικών κυττάρων των νησίδων και σε ορισμένες περιπτώσεις τον σχηματισμό κερατίνης [1,2,14].

δ) Ο *κοκκιοκυτταρικός τύπος* αποτελεί το 3,4% των αμελοβλαστωμάτων και χαρακτηρίζεται από ευμεγέθη κύτταρα κυβοειδούς ή κυλινδρικού σχήματος με άφθονο κυτταρόπλασμα και ηωσινόφιλα κοκκία. Τα κύτταρα αυτά προσομοιάζουν με τα κοκκιώδη κύτταρα που παρατηρούνται σε άλλες οντότητες με αποτέλεσμα αρκετές φορές να προκαλούνται διαφοροδιαγνωστικά προβλήματα.

ε) Ο *βασικοκυτταρικός τύπος* είναι ο πιο σπάνιος με ποσοστό 1,4% και χαρακτηρίζεται από την παρουσία νησίδων, χορδών ή δοκίδων κυλινδρικών κυττάρων χωρίς αστεροειδές δίκτυο. Ο τύπος αυτός προσομοιάζει με το βασικοκυτταρικό καρκίνωμα του δέρματος.

ζ) Ο *δεσμοπλαστικός τύπος* πρωτοπεριγράφηκε το 1981 από τους Takigawa & al και χαρακτηρίζεται από την παρουσία νησίδων αποτελούμενων από κυβοειδή βαθυχρωματικά κύτταρα τα οποία διατάσσονται εντός πυκνού συνδετικού ιστού. Ο τύπος αυτός έχει επιθετική συμπεριφορά και αποτελεί περίπου το 1,4% του συνόλου των αμελοβλαστωμάτων [15].

η) Ο *αγγειοματώδης τύπος* χαρακτηρίζεται από σημαντικό αριθμό εστιών οι οποίες πληρούνται από αίμα. Οι εν λόγω εστίες είναι δυνατόν να προήλθαν από διάταση αγγείων λόγω εκφυλίσεως του υποστρώματος.

Σπανιότερες μορφές αμελοβλαστώματος είναι το κερατινοαδαμαντινοβλάστωμα και το αδαμαντινοβλάστωμα εκ διαυγών κυττάρων [9]. Το τελευταίο περιγράφηκε το 1985 από τους Mueller & Slootweg, είτε ως διαφοροποίηση εκ διαυγών κυττάρων ενός αδαμαντινώματος, είτε ενός αδαμαντινώματος με παράλληλη παρουσία ενός οδοντογενούς καρκινώματος. Ως προς τη βιολογική συμπεριφορά αυτού του όγκου θα πρέπει να υπογραμμισθεί ότι τα αμελοβλαστώματα χαρακτηρίζονται από διηθητική τάση με πιθανότητα επανεμφάνισης μετά από χειρουργική αφαίρεση. Μεταστάσεις παρατηρούνται σχετικά σπάνια με συνηθέστερη εντόπιση τον πνεύμονα[16]. Οι μεταστάσεις συνήθως εμφανίζονται στις περιπτώσεις όπου η εξεργασία χρονολογείται από μακρού [17]. Σε ότι αφορά τη θεραπεία του αμελοβλαστώματος, η ιδιορρυθμία του νεοπλάσματος επιβάλλει προσεχτική εκτίμηση για την εφαρμογή του πλέον κατάλληλου θεραπευτικού σχήματος [18,19,20]. Καλύτερα αποτελέσματα επιτυγχάνονται όταν εφαρμόζεται ολοκληρωμένη χειρουργική αφαίρεση.

Οι παράγοντες που καθορίζουν τον τύπο της χειρουργικής επέμβασης είναι: η ανατομική εντόπιση του όγκου, οι διαστάσεις του, τα ιστολογικά και ακτινολογικά του χαρακτηριστικά, καθώς και η ηλικία, η γενική κατάσταση και η συνεργασία του ασθενούς.

Στη δική μας περίπτωση αξιοσημείωτο είναι το μέγεθος του όγκου και η εντόπισή του.

SUMMARY

The ameloblastoma is an uncommon benign neoplasm. It constitutes less than 1% of all tumors of the oral cavity and 11% of all odontogenic tumors. Histogenetically ameloblastoma arises from the primary odontogenic or tooth forming tissue. The biological behavior of ameloblastoma shows characteristics of a benign but locally aggressive tumour. The rate of local recurrence after excision is high.

We report a case of a 43 year-old man who presented with an ulcerate in the buccal mucosa (wisdom tooth) in the region of the upper jaw. It followed surgical excision. The histological examination showed ameloblastoma. One year afterwards the patient remains free of disease.

Key words: ameloblastoma, epithelial odontogenic tumor

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

1. Αγγελόπουλος Απ, Παπανικολάου Στ, Αγγελοπούλου Ε: Σύγχρονη Στοματική και Γναθοπροσωπική Παθολογία. Ιατρικές εκδόσεις Λίτσας, Αθήνα 2000, σελ 459-465
2. Shafer WG, Hine MK, Levy BM: A Textbook of oral pathology. Second Edition. Philadelphia: Saunders CO;1983 p276-285
3. Batsakis JG.: Odontogenic lesions. Tumors of the head and Neck. Baltimore, Williams &Wilkins 1979 p531-537.
4. Shear M, Singh S : Age-standarized incidence rates of ameloblastoma and dentigerous cyst on the Witwatersrand, South Africa. Community Dent Oral Epidemial 1978 6; p195-199.
5. Nakamura N, Higuchi Y, Mitsuyasu T, et al. :Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma. Oral Surg 2002; 93: p13-20
6. Cawson RA, Bibbie WH, Speight PM, et al. Ameloblastoma. Lucas Pathology of tumors of the oral tissues. 5th Edition. Churgchill Livingstone. London 1998. p25-44.
7. World Health Organization Classification of Tumors. Pathology and genetics of Head and Neck Tumors. IARC Press Lyon, 2005, p296-312
8. Slabbet H, Altini M, Crooks J, Uys P..Ameloblastoma with dentinoid induction: dentinoameloblastoma. J Oral Pathol Med 1992; 21: p46-52
9. Odukoya O, Arole O. Clear cell ameloblastoma of the mandible: a case report. Int J Oral Maxillofac Surg 1992; 21: p358-364
10. Rapidis A, Angelopoulos A, Skouteris C, et al. Mural (Intracystic) ameloblastoma. Int J Oral Surg 1982; 11: p166-174
11. Stanley IA, Diehl DL. Ameloblastoma potential of follicular cysts J Oral Surg 1965; 20: p260-266
12. Gardner DG, Pecak AM. The treatment of ameloblastoma based on pathologic and anatomic principles. Cancer 1980 46: p2514-2519
13. Gardner DG, Corio RL. Plexiform unicystic ameloblastoma: A variant of ameloblastoma with a low recurrence rate after enucleation. Cancer. 1984 Apr 15;53(8): p1730-5.
14. Gruica B, Stauffer E, Buser D, et al. Ameloblastoma of follicular, plexiform and acanthomatous type in the maxillary sinus: a case report. Quintessence Int 2003; 34: p311-314
15. Madiedo G, Choi H, Kleinman JG. .Ameloblastoma of the maxilla with distant metastases and hypercalciemia.Am J Clin Pathol 1981; 75: p585-591.
16. Sheppard B.C, B.K Temeck, J.K Taubenberger, et al. Pulmonary metastatic disease in ameloblastoma Chest 104, 1993: p123-129
17. Baden E, Doyle JL, Petriella V. Malignant transformation of peripheral ameloblastoma Oral Surg 1993; 75: p214-220
18. Olatain AA, Adekeye EO . Clinical features and management of ameloblastoma of the mandible in children and adolescents. Br J Oral Maxillofac Surg 1996; 34: p248-251
19. Gardner DG. A pathologist approach to the treatment of ameloblastoma J Oral Maxillofac Surg 1984; 42: p161-166
20. Zwahlen RA, Gratz KW. Maxillary ameloblastomas: a review of the literature and of a 15-year database. Oral Surg 2001; 91: p649-653.