

## ABSTRACT

**BAGGRUND** - Det unicystiske ameloblastom er en benign tumor med høj recidivtendens, som hyppigst forekommer i mandiblen. Ubehandlet kan det unicystiske ameloblastom vokse til store proportioner.

**PATIENTTILFÆLDE** - En 28-årig kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Afdeling, Aarhus Universitetshospital, for fjernelse af cystelignende forandring i sinus maxillaris. Ved røntgenundersøgelse fandtes en større cystelignende radiolucent forandring og en placering af +8. Der blev i generel anæstesi foretaget biopsi af den cystelignende forandring samt fjernelse af +7 og +8. Den histopatologiske undersøgelse viste, at det var et unicystisk ameloblastom og en follikulær cyste. Patienten fik efterfølgende foretaget fjernelse af tumor samt grundig curettage og indgår nu i et langvarigt kontrolforløb.

**KONKLUSION** - Det unicystiske ameloblastom kan være svært at adskille fra den follikulære cyste. Histologisk undersøgelse er vigtigt for diagnosen og behandlingsvalget. Det fjernes kirurgisk med konserverende eller radikal tilgang. Patientens alder, ameloblastomets lokalisation og type har indflydelse på behandlingsvalget.

**EMNEORD** Ameloblastoma | curettage | follicular cyst | maxillary sinus | recurrence | third molar



Korrespondanceansvarlig førsteforfatter:  
**MARIE KJÆRGAARD LARSEN**  
maklas@rm.dk

## Unicystisk ameloblastom og follikulær cyste i overkæben

**MARIE KJÆRGAARD LARSEN**, uddannelsestandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, ph.d.-studerende, Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Afdeling, Aarhus Universitetshospital, Aarhus, og Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, Aalborg

**JYTTÉ BUHL**, over tandlæge, specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Afdeling, Aarhus Universitetshospital, Aarhus

► Accepteret til publikation den 10. marts 2020

Tandlægebladet 2020:124:XX-X

# A

**MELOBLASTOMER** klassificeres af WHO som benigne epiteliale odontogene tumorer og udgør omkring 1 % af alle tumorer og cyster i kæberne (1-3). Udover det konventionelle ameloblastom underinddeles ameloblastomerne i unicystisk ameloblastom, ekstraossøst/perifert ameloblastom og metastaserende ameloblastom (tidligere angivet som malign odontogen tumor) (1). I 1977 blev det unicystiske ameloblastom foreslået som en selvstændig diagnostisk enhed (4). Det er en langsomt voksende og oftest asymptomatisk tumor, der er lokal invasiv. Ubehandlet kan den vokse til massiv proportion (5). Radiologisk ses det som værende en velafgrænset uni- eller multilokulær radiolucent forandring, som ofte findes i relation til en retineret tredjemolar (6). Derudover kan der ses resorption af tandrødder.

Det unicystiske ameloblastom inddeles i tre undertyper svarende til det histologiske udseende, som er luminal, intraluminal og mural. I den luminal type ses en cyste beklædt med epitel, der har opbygning som et ameloblastom. I den intraluminal type ses ligeledes en cyste med epitel som et ameloblastom, men der forekommer en eller flere projektioner af cysteepitelet ind i cystelumen, mens der i den murale type ses øer af ameloblastom at være infiltreret i cystevæggens bindevæv (6). Det histologiske udseende har betydning for recidivtendensen, hvor den murale type anses for at have høj recidivtendens, mens den luminal og intraluminal type anses for at have lavere recidivtendens (6).

Det unicystiske ameloblastom optræder hyppigst hos yngre patienter, hvoraf 85 % findes i mandiblen, og 15 % findes i maksillen (6). Overordnet er fordelingen mellem mænd og kvinder ligelig. Ameloblastomer i maksillen anses for at være mere aggressive end ameloblastomer i mandiblen, hvilket bl.a. skyldes de anatomiske forhold. Maksillen har en tyndere og mindre veldefineret knogle end mandiblen, og det tillader hurtigere spredning til nabostrukturer som basis cranii og cerebrum (3,5). Ameloblastomer i maksillen optræder desuden hyppigere hos mænd end hos kvinder (5).

Der er beskrevet store variationer i behandling af et unicystisk ameloblastom, og disse afhænger bl.a. af patientens alder, lokalisation og den histologiske type af det unicystiske ameloblastom. Den kirurgiske behandling kan være konservativ med enukleation eller marsupialisation kombineret med curettage, Carnoys opløsning eller kryoterapi (flydende nitrogen) eller radikal med segmental blokresektion eller mandibulektomi/maksillektomi (6,7). Recidivtendensen ved kirurgisk behandling er 3-21 % (6,8,9).

I nærværende artikel præsenteres en 28-årig kvinde med et unicystisk ameloblastom og en follikulær cyste i overkæben. Behandling og efterfølgende kontrolforløb diskuteres.

## PATIENTTILFÆLDE

### Anamnese

En 28-årig kvinde blev henvist fra egen tandlæge til Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Afdeling, Aarhus Universitetshospital, for videre udredning og behandling af displaceret +8 og

cystelignende forandring i venstre sinus maxillaris. Patienten var generet af +7, som var mobil, og angav periodevis ømhed fra venstre sides overkæbe.

### Objektiv undersøgelse

*Ekstraoralt* – Upåfaldende forhold. Ingen tegn på hævelse eller sensitivitetstørrelser.

*Intraoralt* – I sulcus alveolobuccalis i venstre side langs for- og lateralvæggen af sinus maxillaris fandtes palpationsømhed. Der blev registreret en patologisk poche på 11 mm distalt for +7, som var mobil af 3. grad. Slimhinden i området havde normalt udseende.

### Radiologisk undersøgelse

Oversigtsrøntgen viste +8 displaceret mod venstre sides orbitabund samt en sløring af sinus maxillaris i relation til denne. Desuden sås resorption af rødderne på +7 (Fig. 1).

### Tentativ diagnose

Cystis dentalis follicularis.

### Behandling

I general anæstesi blev der lagt en incision i margo gingiva fra +3 til +7. Slimhinde og periost blev frirougineret svarende til for- og lateralvæggen for sinus maxillaris. Der sås en mindre perforation af den bukkale knogle. Tand +7 blev ekstraheret, og der forekom sivende væske fra kaviteten, der blev foretaget biopsi og fjernet patologisk væv, hvorefter +8 kunne lokali- ▶

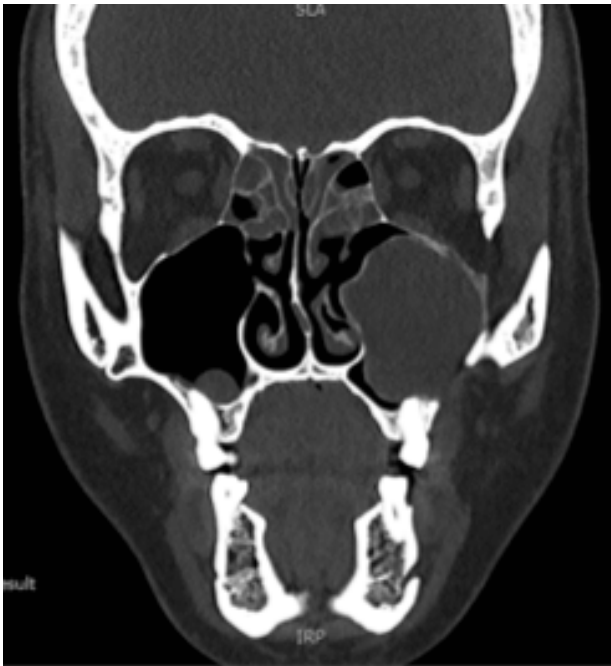
## Præoperativ røntgen



Fig. 1. Panoramaoptagelse visende en sløret forandring i sinus maxillaris og displaceret +8.

Fig. 1. Panoramic x-ray showing a blurred lesion in maxillary sinus and a displaced +8.

### Præoperativ CT-scanning



**Fig. 2.** CT-scanning visende en rumudfyldende proces i venstre sinus maxillaris.  
**Fig. 2.** CT-scanning showing a space-occupying lesion in the left maxillary sinus.

### Præoperativ CT-scanning



**Fig. 3.** CT-scanning visende en rumudfyldende proces i venstre sinus maxillaris.  
**Fig. 3.** CT-scanning showing a space-occupying lesion in the left maxillary sinus.

seres og fjernes *in toto*. Den bukkale slimhinde blev mobiliseret, så slimhinden kunne lukkes primært. Det exciderede væv blev sendt til histopatologisk undersøgelse som tre præparater. Patienten blev instrueret i postoperative forholdsregler, herunder at nyse med åben mund og undgå at pudse næse. Der blev ordineret postoperativt antibiotikum i form af phenoxymethylpenicillin (Primcillin®, 800 mg, 1 stk. x 4 dagligt i 7 dage). Det postoperative forløb var komplikationsfrit.

### Klinisk foto ved fjernelse



**Fig. 4.** Peroperativt klinisk foto visende ameloblastomet under fjernelse.  
**Fig. 4.** Peroperative photo illustrating the ameloblastoma under its removal.

### Klinisk foto ved fjernelse



**Fig. 5.** Peroperativt klinisk foto visende ameloblastomet.  
**Fig. 5.** Peroperative photo illustrating the ameloblastoma.

### Histologisk undersøgelse

Det ene præparat viste en cystevæg beklædt med et 1-3-laget veldifferentieret, ikke-keratiniserende pladeepitel, hvorunder der sås kollagent, myksomatøst bindevæv. Præparatet var foreneligt med en follikulær cyste.

De to andre præparater viste en cystevæg beklædt med epitel med cylindriske basalceller med kernerne polariseret væk fra basalmembranen og mere løst strukturerede epitelceller mod

lumen. Fritliggende sås flager med solide pleksiforme ameloblastomproliferationer, der formentlig repræsenterede proliferationer af cystevæggen ind i cystelumen. I det underliggende bindevæv sås store fragmenter af et tumurvæv indeholdende spredtliggende små odontogene cellereder. Den histologiske undersøgelse var forenelig med et unicystisk ameloblastom af luminal type.

### Endelig diagnose

Unicystisk ameloblastom med luminale proliferationer samt follikulær cyste.

### Yderligere behandlinger

På baggrund af den histopatologiske undersøgelse, risiko for recidiv af unicystisk ameloblastom og forekomst af eventuelt restvæv i sinus maxillaris blev der foretaget en computertomografisk røntgenscanning (CT-scanning). CT-scanningen viste en fortsat udfyldning af hele venstre sinus maxillaris (Fig. 2 og 3), og patientens sygdomsbillede blev diskuteret ved en multidisciplinær konference med øre-næse-hals-læge, plastikkirurg, radiolog og specialtandlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi. Det blev vurderet, at der fandtes indikation for yderligere excision af blødtvæv i sinus maxillaris og grundig curettage.

I generel anæstesi blev der lagt en incision i margo gingiva fra +3 til tuber maxillaris. Slimhinde og periost blev frirougineret. Der sås en større knogledefekt mod tuber målende ca. 25 x 25 mm. Vævet i sinus maxillaris fandtes adhærent til corpus adiposum. Det var muligt at frigøre væv i sinus maxillaris fra corpus adiposum og få cleavage mellem væv og sinus maxillaris' knoglevægge. Vævet blev frigjort og fjernet *in toto* (Fig. 4 og 5). Tand +6 var adhærent til vævet og blev derfor ekstraheret. Der blev foretaget grundig curettage, samtlige knogleflader blev afglattet, og der blev udført grundig skylning i sinus maxillaris. Corpus adiposum blev mobiliseret for at dække knogledefekten, og der blev sutureret i to lag med anvendelse af denne. Patienten blev instrueret i postoperative forholdsregler, og der blev ordineret postoperativ antibiotika i form af phenoxymethylpenicillin (Primcillin®, 800 mg, 1 stk. x 4 dagligt i 7 dage) og metronidazol (Metronidazol®, 500 mg, 1 stk. x 3 dagligt i 7 dage). Det postoperative forløb var komplikationsfrit.

Det exciderede væv blev sendt til histopatologisk undersøgelse, og diagnosen var den samme som ved den første biopsi.

### DISKUSSION

I nærværende artikel præsenteres en 28-årig kvinde med en follikulær cyste og et unicystisk ameloblastom i maksillen. Et unicystisk ameloblastom vokser langsomt og er i starten symptomfattigt. I maksillen er ameloblastomet ofte placeret posterioart, hvilket gør, at det ofte har opnået en betragtelig størrelse ved dets diagnostik (5). I aktuelle patienttilfælde var patienten generet af øget mobilitet af tanden +7 og ømhed af venstre sides overkæbe. Oversigtsrøntgen viste en unilokulær, cystelignende forandring med displacering af +8. På den baggrund var der mistanke om en follikulær cyste. Den histologiske undersøgelse viste, at der var tale om en folli-

## Klinisk relevans

Det unicystiske ameloblastom er en benign tumor, som er lokalt invasiv og i nogle tilfælde har høj recidivtendens. Klinisk og radiologisk er den svær at adskille fra en follikulær cyste og en keratocyste. Histologisk undersøgelse er derfor vigtigt for at kunne stille den korrekte diagnose. Det unicystiske ameloblastom fjernes kirurgisk ved konservativ eller radikal tilgang. Patientens alder, typen og lokaliseringen af det unicystiske ameloblastom har indflydelse på den kirurgiske behandling.

kulær cyste og et unicystisk ameloblastom af luminal type. Patienten fik derfor foretaget en yderligere operation med grundig curettage.

En follikulær cyste omkranser kronen af en retineret tand og kan medføre displacering af tanden til bl.a. orbitagulvet (6). Radiologisk vil den vise sig som en unilokulær radiolucent cystelignende forandring omkring kronen af en ikke frembrudt tand. Derudover kan der ses resorption af tandrødder. Den follikulære cyste fjernes kirurgisk, og recidivtendensen er lav (6). Neoplastisk transformation af en follikulær cyste til et ameloblastom er tidligere beskrevet (10,11). Den aktuelle histologiske undersøgelse viste, at tumoren indeholdt vævsmateriale fra både en follikulær cyste og et unicystisk ameloblastom. Det tyder derfor på, at der er en sammenhæng mellem udvikling af det unicystiske ameloblastom og en follikulær cyste, som tidligere beskrevet i litteraturen (10,11).

Generelt er der stor enighed om, at unicystiske ameloblastomer bør behandles med konservativ kirurgi og et længere kontrolforløb (8). En nylig publiceret oversigtsartikel har sammenlignet recidivtendensen for det unicystiske ameloblastom ved konservativ kirurgi og radikal kirurgi. Recidivtendenserne var henholdsvis 21 % og 3 % (8).

I aktuelle patienttilfælde blev der foretaget fjernelse af det unicystiske ameloblastom med en konserverende kirurgisk tilgang. Behandlingen var blevet drøftet ved en multidisciplinær konference. Der er generelt stor uenighed om, hvor omfattende den kirurgiske behandling skal være, når det unicystiske ameloblastom er lokaliseret i maksillen (12-14). Maksillen mangler en tyk, veldefineret knogle og tillader derfor nemmere spredning til vitale strukturer som basis cranii og cerebrum. I aktuelle patienttilfælde var der en kortikal knogleafgrænsning omkring ameloblastomet (Fig. 2 og 3), og det var fortsat kun lokaliseret til sinus maxillaris. På baggrund af disse forhold og patientens alder valgtes en konservativ tilgang med grundig curettage. En radikal kirurgisk fjernelse af det unicystiske ameloblastom vil omfatte enten segmental blokresektion eller total eller partiel maksillektomi. Dette ville medføre en vanskeligere rehabilitering og ændring i ansigtsfysiognomien hos patienten. Nogle forfattere mener, at den radikale kirurgiske fjernelse nedsætter risikoen for recidiv i en sådan grad, at det opvejer de store vanskelige problemer med rehabiliteringen ▶

(12). På trods af mulighederne for rehabilitering med obturator og knogletransplantater er det et omfattende og længerevarende forløb. Patienten er fortsat i et kontrolforløb, og såfremt der skulle forekomme recidiv, vil der blive foretaget radikal kirurgisk fjernelse.

#### TAK

Specialtandlæge Mette Thastum takkes for bidrag i forbindelse med behandling og peroperative kliniske fotos af patienten. Professor Jesper Reibel takkes for bidrag i forbindelse med histopatologisk undersøgelse af præparaterne. ♦

## ABSTRACT (ENGLISH)

### AN UNICYSTIC AMELOBLASTOMA AND A FOLLICULAR CYST IN THE MAXILLARY SINUS

**BACKGROUND** - The unicystic ameloblastoma is a benign tumour with a high recurrence rate. It is often seen in the mandible. Untreated, the unicystic ameloblastoma can grow to large proportions.

**CASE STUDY** - A 28-year-old female was referred by her general dental practitioner to the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Aarhus University Hospital, for removal of a cyst and a displaced wisdom tooth to the maxillary sinus. Panoramic x-ray showed a displaced maxillary third molar and a well-defined radiolucent change in relation to this. In

general anaesthesia, a biopsy was taken and the second and third molars were removed. The histopathological examination showed that it was a unicystic ameloblastoma and a follicular cyst. The patient underwent further surgery with removal of the tumour and thorough curettage. The patient is in a prolonged course of control.

**CONCLUSION** - The unicystic ameloblastoma can be difficult to differentiate from the follicular cyst. Histological examination is important for diagnosis and treatment choice. It is surgically removed with conservative or radical approach. The choice of treatment is influenced by the patient's age, location and type of unicystic ameloblastoma.

## LITTERATUR

1. El-naggar AK, Chan J, Gradis J. WHO Classification of head and neck tumours. 4th ed. Lyon: International Agency for Research on Cancer (IARC), 2017.
2. Siriwardena BSMS, Tennakoon TMPB, Hunter KD et al. Unicystic ameloblastoma: Analysis of 370 cases in a single center in Sri Lanka. *J Oral Pathol Med* 2018;47:706-9.
3. Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma. A review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol* 1998;34:317-25.
4. Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer* 1977;40:2278-85.
5. Tsaknis PJ, Nelson JF. The maxillary ameloblastoma: an analysis of 24 cases. *J Oral Surg* 1980;38:336-42.
6. Neville B, Damm D, Allen C et al. *Oral and Maxillofacial Pathology*. 4th ed. St. Louis: Saunders, 2015.
7. Neagu D, Escuder-de la Torre O, Vázquez-Mahía I et al. Surgical management of ameloblastoma. Review of literature. *J Clin Exp Dent* 2019;11:e70-5.
8. Hendra FN, Natsir Kalla DS, Van Cann EM et al. Radical vs conservative treatment of intraosseous ameloblastoma: Systematic review and meta-analysis. *Oral Dis* 2019;25:1683-96.
9. Antonoglou GN, Sándor GK. Recurrence rates of intraosseous ameloblastomas of the jaws: A systematic review of conservative versus aggressive treatment approaches and meta-Analysis of non-randomized studies. *J Cranio-maxillofac Surg* 2015;43:149-57.
10. Carr BM, Mohnac AM. Simple ameloblastoma within a follicular cyst of the maxilla: Report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1962;15:1136-41.
11. Stanley HR, Diehl DL. Ameloblastoma potential of follicular cysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1965;20:260-8.
12. Marker P, Jørgensen KE, Krogdahl A et al. Behandling af ameloblastomer i maksillen. *Tandlægebladet* 1999;103:648-54.
13. Lau SL, Samman N. Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006;35:681-90.
14. Parmar S, Al-Qamachi L, Aga H. Ameloblastomas of the mandible and maxilla. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2016;24:148-54.

