

ABSTRACT

Unicystisk ameloblastom – histologisk undersøgelse nødvendig for at stille den korrekte diagnose

Baggrund – Det unicystiske ameloblastom er en benign odontogen tumor, der histopatologisk præsenterer sig som en cystisk forandring. Den diagnosticeres hyppigst hos yngre mennesker og forekommer fortrinsvis i underkæben. Årsagen er ukendt. Det unicystiske ameloblastom er oftest asymptomatisk og diagnosticeres som regel i forbindelse med rutinemæssig røntgenundersøgelse. Recidivtendensen er generelt lavere end ved konventionelt ameloblastom, men i nogle tilfælde er recidivtendensen dog høj.

Patienttilfælde – En 20-årig mand blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, mhp. diagnostik og behandling af hævelse svarende til venstre ansigtshalvdel. Røntgenoptagelse viste en velafgrænset multilokulær radiolucens i venstre side af underkæben med involvering af en retineret visdomstand. Der blev foretaget enukleation, og ved etårs kontrol viste panoramarøntgen recidiv. Der blev foretaget fornyet kirurgisk fjernelse, og ved femårs kontrol fandtes klinisk og radiologisk knogleheling uden tegn på recidiv.

Konklusion – Det unicystiske ameloblastom er en sjældent forekommende tumor, som klinisk og radiologisk kan være vanskelig at adskille fra en follikulær cyste eller keratocyste, hvorfor histologisk undersøgelse er obligatorisk på grund af recidivtendensen. Tumoren behandles med kirurgisk fjernelse. Imidlertid er recidivfrekvensen høj, hvorfor et langvarigt klinisk og radiologisk kontrolforløb er nødvendigt.

Unicystisk ameloblastom – fem års klinisk og radiologisk opfølgning

Kristoffer Schwartz, uddannelsestidslæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, og Tand-, Mund- og Kæbekirurgisk Afdeling, Aarhus Universitetshospital

Jesper Reibel, professor, dr. et lic.odont., Oral Patologi & Oral Medicin, Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet

Thomas Jensen, forsknings- og uddannelsesansvarlig overtlæge, postgraduat klinisk lektor, specialtlæge i tand-, mund- og kæbekirurgi, ph.d., Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital

Unicystisk ameloblastom (UA) er en sjældent forekommende benign odontogen tumor, som klinisk er karakteriseret ved en velafgrænset uni- eller multilokulær opløsning, ofte i relation til en retineret tredje molar (1). UA blev første gang beskrevet i 1977, og WHO klassificerer tumoren som en benign odontogen tumor med epitelial oprindelse (Tabel 1) (1,2). UA er en undergruppe af ameloblastomer og præsenterer sig histopatologisk, til forskel fra de øvrige ameloblastomtyper, som ét cystisk hulrum. UA udgør 5-20 % af alle intraossøse ameloblastomer (3-6). Tumoren optræder hyppigst hos yngre patienter, og > 90 % findes i underkæben og med en ligelig fordeling mellem mænd og kvinder (3,7). UA er ofte asymptomatiske, men kan give anledning til symptomer i form af tiltagende hævelse og smerter (3,7). Radiologisk ses UA som en velafgrænset uni- eller multilokulær radiolucens forandring og ofte i relation til en retineret visdomstand (3,7,8). Histologisk kan UA inddeles i tre typer: luminal, intraluminal og mural. Ved den luminal type ses en cyste beklædt med epitel med opbygning som ameloblastom, dvs. mod bindevævet cylindriske epitelceller med palisadestillede kerner polariseret væk

fra basalmembranen, og herover (luminalt) stellat reticulum-lignende epitellag. I den intraluminal type ses en eller flere projektioner af cysteepitelet ind i cystelumen, og ved den murale type ses bindevævet i cystevæggen at være infiltreret af øer af ameloblastom (2,5).

EMNEORD

ameloblastoma;
diagnosis;
mandibular disease;
operative procedure;
pathology

Den murale type har formentlig en høj recidivtendens som konventionelt ameloblastom, mens den luminale og intraluminal type har lavere recidivtendens. Klinisk/radiologisk vanskeliggøres diagnostikken ved, at UA kan ligne bl.a. en follikulær cyste eller keratocyste, hvorfor histologisk undersøgelse er nødvendig for at verificere den endelige diagnose.

I nærværende artikel præsenteres en 20-årig mand med et UA i underkæben, og de hyppigste differentialdiagnostiske overvejelser diskuteres.

Patienttilfælde

En 20-årig mand blev henvist fra egen tandlæge til Kæbekirurgisk Afdeling, Aalborg Universitetshospital, for diagnostik og behandling af hævelse svarende til venstre side af ansigtet. Patienten havde igennem det seneste år bemærket en tiltagende hævelse over venstre ansigtsdel samt nedsat gabeevne og ømhed ved synkning.

Objektiv undersøgelse

Ekstraoralt – Der fandtes en fast og hård hævelse svarende til venstre ramus mandibulae. Der var smerter ved palpation, og gabeevnen blev målt til 42 mm.

Intraoralt – Undersøgelsen viste et intakt og velholdt tandsæt. Ingen løsning af tænderne. Imidlertid kunne der palperes en hård hævelse i sulcus aveolo-buccalis regio -8.

Radiologisk undersøgelse

Panoramaoptagelse viste en 5½ x 3 cm velafgrænset multilokulær radiolucent opklaring i venstre side af underkæben, strækkende sig fra -7 til incisura mandibulae. Der var rodresorption svarende til -7, og -8 var displaceret og horisontalt beliggende ved basis af mandiblen (Fig. 1).

Benigne odontogene tumorer

Odontogent epitel med modent fibrøst stroma uden odontogent ektomesenkym

- Ameloblastom, solid/multicystisk type
- Ameloblastom, ekstraossøs/perifer type
- Ameloblastom, desmoplastisk type
- Ameloblastom, unicystisk type
- Squamous odontogenic tumour
- Forkalkende epitelial odontogen tumor
- Adenomatoid odontogen tumor
- Keratocystisk odontogen tumor

Table 1. WHO's klassifikation af odontogene tumorer fra 2005 (uddrag).

Table 1. WHO classification of odontogenic tumours from 2005.

Røntgenbillede af patienten inden behandlingen



Fig. 1 Panoramaoptagelse viser en velafgrænset multilokulær radiolucent opklaring i venstre side af underkæben.

Fig. 1 Panoramic x-ray shows a well-defined multilocular radiolucency in the lower jaw.

Klinisk foto taget under operationen

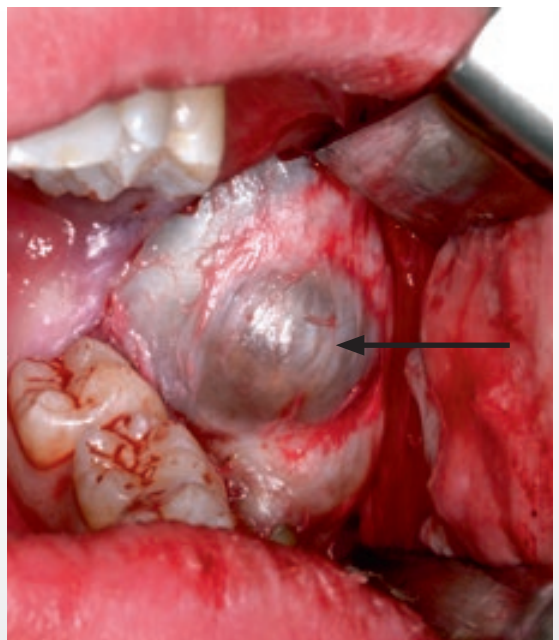


Fig. 2 Destruktion af knoglen svarende til ramus mandibulae med gennembrud af patologisk væv (pil).

Fig. 2 Bone destruction and breakthrough of pathological tissue in the mandible was seen (arrow).

Histologien af det udtagne væv

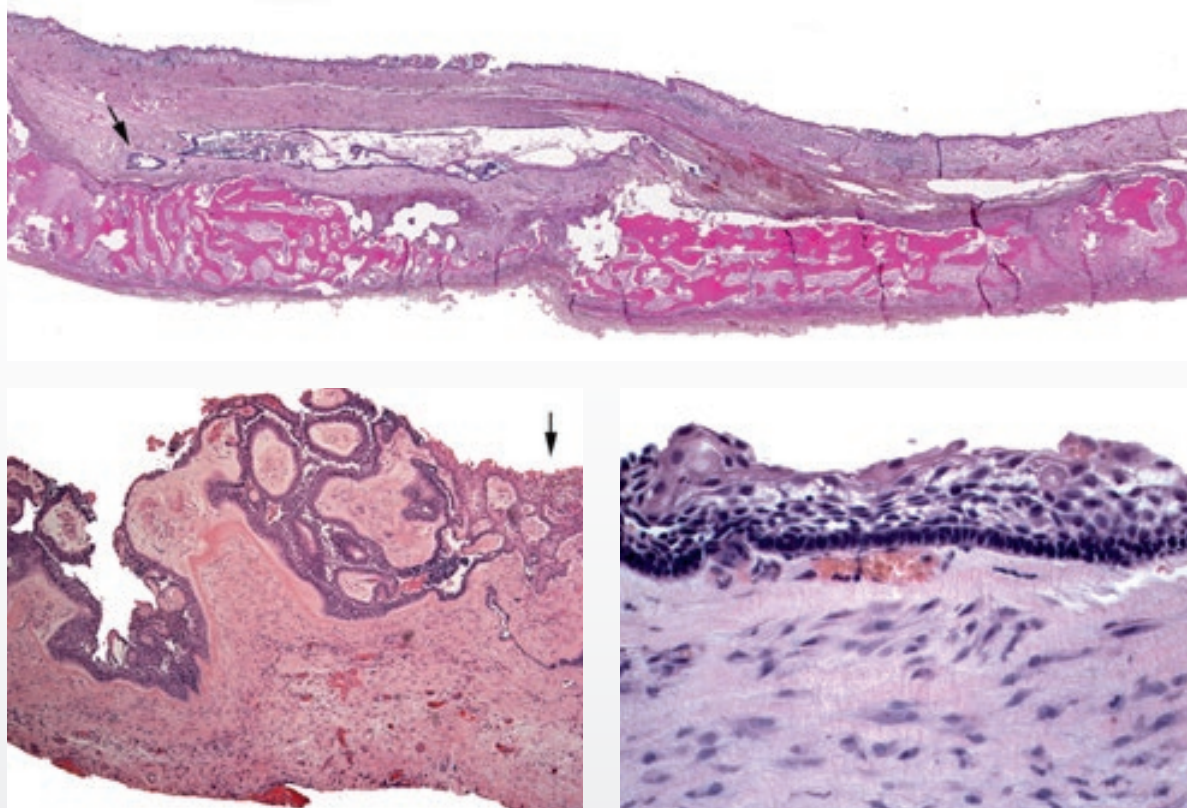


Fig. 3 Øverst oversigt, der viser den generelle opbygning af vævet som en cyste med tynd epitelbeklædning på hele den øverste langside, underliggende bindevæv og dybest reaktiv knogledannelse (eosinofile (røde) knogletrabekler). Bemærk i venstre halvdel af billedet epiteløer med cystisk degeneration tæt på knoglen (mural proliferation) (pil). Nederst til venstre den prolifererende epitelbeklædning med opbygning som ameloblastom. Til højre i billedet en mere uspecifik epitelbeklædning (pil). Nederst til højre høj forstørrelse af cysteepitelet med typisk ameloblastomopbygning (se tekst).

Fig. 3 Histological appearance showing a lining of ameloblastomatous epithelium. In the fibrous connective tissue wall islands of ameloblastoma with cystic degeneration are seen in upper illustration (mural proliferations) (arrow).

Tentativ diagnose

På baggrund af ovenstående anamnese samt klinisk og radiologisk undersøgelse blev der stillet følgende tentative diagnose: Cystis dentalis follicularis et keratocystis odontogenica obs. pro.

Behandling

I generel anæstesi blev der lagt en incision fra ramus' forkant gående frem marginalt til -4. Slimhinde og periost blev frirougeret svarende til facialfladen af corpus og ramus mandibulae. Der var udtalt destruktion af knoglen svarende til ramus mandibulae med gennembrud af patologisk væv (Fig. 2). Med stump dissektion blev det patologiske væv frilagt fra omkringliggende slimhinde og kunne med god clivage løsnes fra knoglen. Oralt i processus coronoideus var der gennembrud af knoglen med adhærens til muskulaturen. Det patologiske væv blev fjernet *in*

toto og sendt til histologisk undersøgelse på Patologisk Institut, Aalborg Universitetshospital. På grund af udtalt rodresorption blev -7 ekstraheret, og -8 blev fjernet skånsomt. N. alveolaris inf. var intakt og frit beliggende i bunden af kaviteten. Der blev foretaget grundigt sårtoilette og primær suturering. Det postoperative forløb var komplikationsfrit, og patienten blev udskrevet dagen efter operationen.

Histologisk undersøgelse

Præparatet bestod af en cystevæg beklædt med epitel med opbygning som ameloblastom. Stedvist havde epitelet en mere uspecifik morfologi i form af et uforhøret pladeepitel. I nogle områder sås proliferationer af epitelet ind i cystelumen, og andre steder sås ameloblastomer beliggende i den kollagene bindevævskapsel, stedvist ganske tæt på perifere trabekler af knoglevæv. Subepitelialt forekom lette infiltrater af kroniske in-



flammationsceller. Det histologiske billede var således forenligt med et unicystisk ameloblastom med såvel intraluminale som murale epitelproliferationer (Fig. 3).

Efterfølgende kontrol og behandling

Patienten blev efterfølgende kontrolleret regelmæssigt, og ved etårs kontrol viste panormaoptagelse en 1½ x 1½ cm opklaring i processus coronoideus (Fig. 4). I generel anæstesi blev der foretaget kirurgisk fjernelse af forandringen i processus coronoideus, og den histologiske undersøgelse viste unicystisk ameloblastom (Fig. 5). Klinisk og radiologisk kontrol efter fem år har vist fuldstændig ossøs healing uden tegn på fornyet recidiv samt normal sensibilitet svarende til hage og læbe (Fig. 6).

Diskussion

I nærværende artikel præsenteres en 20-årig mand med UA i venstre side af underkæben. UA optræder hyppigst hos yngre patienter og findes fortrinsvis i underkæben (> 90 %). Radiologisk præsenterer UA sig som uni- eller multilokulære opklaringer i knoglen og ses ofte i relation til en ikke frembrudt tredje molar. De kliniske og radiologiske fund i det aktuelle patienttilfælde var således karakteristiske for UA, men den endelige diagnose kan kun stilles ved histologisk undersøgelse. I det beskrevne patienttilfælde er de væsentligste differentialdiagnoser follikulærcysten og keratocysten.

En follikulær cyste er en epitelial cyste med udviklingsmæssig oprindelse og udgør 17-24 % af alle cyster i kæberne

KLINISK RELEVANS

Et unicystisk ameloblastom kan klinisk og radiologisk ligne en follikulær cyste eller keratocyste. Histologisk undersøgelse er nødvendig for at stille den korrekte diagnose. Det unicystiske ameloblastom forekommer hos yngre patienter og diagnosticeres oftest i forbin-

delse med anden radiologisk undersøgelse. Det er derfor relevant at have kendskab til det unicystiske ameloblastom og dets differentialdiagnoser ved vurdering af oversigtsrøntgen hos yngre patienter.

Kontrolrøntgen



Fig. 4 Panormaoptagelse ved etårs kontrol viste en 1,5 x 1,5 cm opklaring i processus coronoideus.

Fig. 4 Panoramic x-ray at the 1-year follow-up showed a 1.5 x 1.5 cm radiolucency in the processus coronoideus.

Klinisk foto taget under operationen

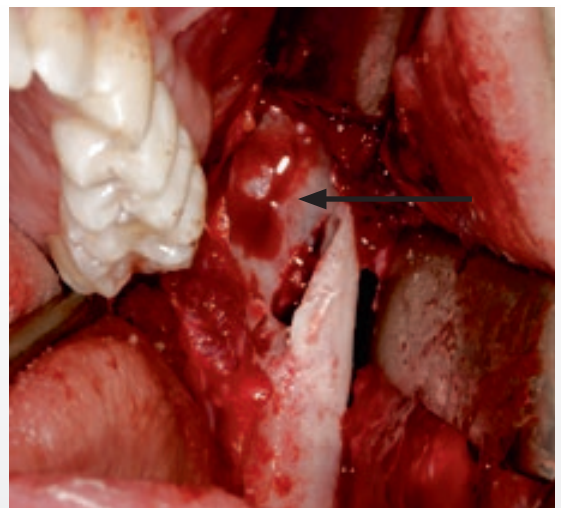


Fig. 5 Kirurgisk fjernelse af forandringen i processus coronoideus (pil).

Fig. 5 Enucleation of the pathological lesion in processus coronoideus (arrow).

Kontrolrøntgen

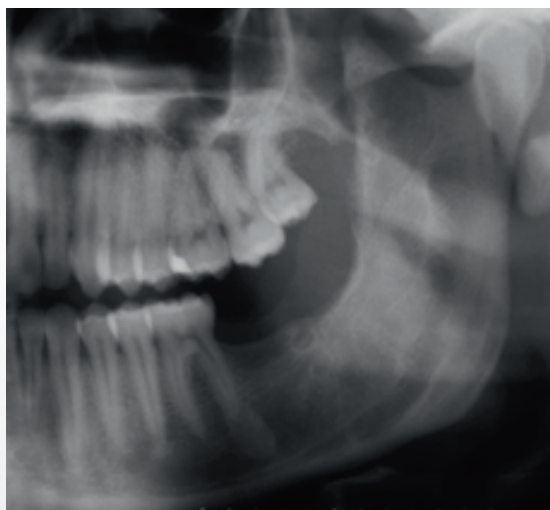


Fig. 6 Panoramaoptagelse efter 5 år viser fuldstændig ossøs heling uden tegn på recidiv.

Fig. 6 Panoramic x-ray at the 5-year follow-up showed a complete osseous healing without any signs of recurrence.

I det aktuelle patienttilfælde er det kun det histologiske billede og den radiologiske multilokulære præsentation, der adskiller UA fra en follikulær cyste.

Keratocysten klassificeres af WHO som en benign odontogen tumor (keratocystisk odontogen tumor) (Tabel 1) (1), og udgør 3-11 % af alle cyster i kæberne (3,9). Den forekommer hyppigst i 10-40-årsalderen, og mænd er svagt overrepræsenterede (3,9). Keratocyster forekommer overvejende i underkæben, hvor de oftest er lokaliseret til den posteriore del (3,9). De fleste keratocyster er asymptomatiske og opdages oftest i

forbindelse med anden radiologisk undersøgelse af kæberne. I tilfælde af større keratocyster kan der opstå smerter og hævelse (3,9). Radiologisk ses keratocyster som velafgrænsede uni- eller multilokulære forandringer af varierende størrelse. I 25-40 % af tilfældene ses der en ikke-erupteret tand i relation til forandringen (3,9). Histologisk viser keratocysten et parakeratiniseret epitel og et veldefineret basalcellelag med palisadestillede kerner (1,3,9). Behandlingen er enukleation, og recidivfrekvensen er omkring 30 % (3,9).

I det aktuelle patienttilfælde er det kun det histologiske billede, der adskiller UA fra en keratocyste.

Klinisk/radiologisk kunne det aktuelle tilfælde endvidere repræsentere et konventionelt solidt/multicystisk ameloblastom eller en anden benign neoplasmi, men det peroperative fund af én cystisk kavitet udelukker disse differentialdiagnoser.

På baggrund af at UA klinisk og radiologisk er vanskeligt at adskille fra de hyppigere forekommende follikulære cyster og keratocyster, vil behandlingen oftest være enukleation. Forskellige behandlingsstrategier for UA er beskrevet i litteraturen og varierer afhængigt af alder, lokalisationen og histologisk type (8,10,11). Den luminale og intraluminal type af UA er mindre aggressiv end den murale type og har derved en bedre prognose og mindre recidivtendens (1,5,8,10). UA er tidligere behandlet med blok- og kontinuitetsresektion, hvorved risikoen for recidiv er meget lav (3-4 %) (8,12). Til trods for en lav recidivrisiko er behandling med resektion ikke at foretrække, da behandlingen kan have en negativ indflydelse på livskvaliteten samt afstedkomme et behov for større eller mindre rekonstruktiv kirurgi eller protetisk rehabilitering. Kirurgisk behandling i form af enukleation og curettage er at foretrække hos yngre patienter, men recidivfrekvensen er høj (30 %) (8,10). Ved recidiv af UA vil dette i 50 % af tilfældene opstå indenfor de første fem år efter behandlingen, hvorfor et langvarigt klinisk og radiologisk kontrolforløb er nødvendigt (8,13).

ABSTRACT (ENGLISH)

Unicystic ameloblastoma – 5-year clinical and radiographic follow-up

Background – Unicystic ameloblastoma is a benign odontogenic tumour that histopathologically presents itself as a cystic lesion. They are mostly seen in younger patients and are mainly found in the lower jaw. The cause is unknown. Unicystic ameloblastoma is usually asymptomatic and is often diagnosed by routine radiographic examination. The recurrence rate is generally lower compared to the conventional ameloblastoma, although in some cases the recurrence rate is high.

Case study – A 20 year-old male was referred from his own dentist to the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Aalborg University Hospital for diagnosis and treatment of a

swelling in the left side of the face. Panoramic x-ray showed a well-defined multilocular radiolucency in the left mandible with involvement of an unerupted mandibular third molar. The lesion was removed by enucleation but a recurrence was detected on the panoramic x-ray at the 1-year follow-up. This was surgically removed and the 5-year follow-up showed no sign of recurrence.

Conclusion – Unicystic ameloblastoma is a rare benign tumour which clinically and radiographically can be difficult to separate from a dentigerous cyst or odontogenic keratocyst. Histological examination is required because of the recurrence rate. The tumour is treated by surgical removal. However, the recurrence rate is high and a prolonged clinical and radiographic follow-up is necessary.

Litteratur

1. Barnes L, Eveson JW, Reichart P et al. World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon: IARC Press, 2005.
2. Robinson L, Martinez MG. Unicystic ameloblastoma: a prognostically distinct entity. *Cancer* 1977;40:2278-85.
3. Neville BW, Damm DD, Allen CM et al. Oral and maxillofacial pathology. 3rd ed. St Louis: Saunders, 2009.
4. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995;31:86-99.
5. Ackermann GL, Altini M, Shear M. The unicystic ameloblastoma: a clinicopathological study of 57 cases. *J Oral Pathol* 1988;17:541-6.
6. Dhanuthai K, Chantarangsu S, Rojanawatsirivej S et al. Ameloblastoma: a multicentric study. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012;113:782-8.
7. Philipsen HP, Reichart PA. Unicystic ameloblastoma: a review of 193 cases from the literature. *Oral Oncol* 1998;34:317-25.
8. Seintou A, Martinelli-Kläy CP, Lombardi T. Unicystic ameloblastoma in children: systematic review of clinicopathological features and treatment outcomes. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2014;43:405-12.
9. Shear M, Speight PM. Cysts of the oral and maxillofacial regions. 4th ed. Oxford: Wiley-Blackwell, 2007.
10. Lau SL, Samman N. Recurrence related to treatment modalities of unicystic ameloblastoma: a systematic review. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2006;35:681-90.
11. Bisinelli JC, Ioshii S, Retamoso LB et al. Conservative treatment of unicystic ameloblastoma. *Am J Orthod Dentofacial Orthop* 2010;137:396-400.
12. Ngwenya SP, Raubenheimer EJ, Noffke CE. Internal morphology of ameloblastoma: a study of 24 resected specimens. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009;108:754-62.
13. Zhang J, Gu Z, Jiang L et al. Ameloblastoma in children and adolescents. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2010;48:549-54.



Helle Kvist Ilskjær
Erhvervsdirektør



Kristian Ebdrup
Erhvervs-kundechef

Husk, vi er
tandlægernes bank

Vil du videre, så ring til os på
3378 2388 og aftal et møde.
Du kan også læse mere om
Lån & Spar Erhverv og vores
fokusområder på www.lsb.dk/erhverv

lån & spar

din personlige bank