

Squamous odontogenic tumour

En oversigt og præsentation af et tilfælde

Rannvá C. Matras, Anders Nattestad og Jesper Reibel

Squamous odontogenic tumour er en relativt nybeskrevet benign odontogen tumor. Under kirurgisk fjernelse af en formodet lateral parodontal cyste blev der fundet solidt tumorvæv, der viste sig at repræsentere et tilfælde af denne sjældne tumor. Artiklen indeholder en beskrivelse af tilfældet, en gennemgang af litteraturen om denne tumor og en diskussion af differentialdiagnostikken, herunder de overvejelser som opstår peroperativt.

Squamous odontogenic tumour (SOT) er en sjælden benign neoplasme, der blev beskrevet første gang af Pullon *et al.* i 1975 (1). Tumor blev inkluderet i 1992-udgaven af WHO's klassifikation af odontogene tumorer som en benign tumor med odontogent epitel uden odontogent ektomesenkym (2). Recidivtilbøjeligheden er tilsyneladende lille, men multipel forekomst i kæberne er ikke sjælden.

Der er siden 1975 rapporteret 39 tilfælde på verdensplan, hvoraf 36 er samlet i en oversigtsartikel fra 1996 (3-5).

Eget tilfælde

En 17-årig pige af islandsk oprindelse blev i oktober 1999 henvist af Københavns Kommunale Tandpleje til Afdeling for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi, Tandlægeskolen, Københavns Universitet, for kirurgisk behandling af en cyste mellem +4 og +5. Patienten var rask bortset fra astmatiske symptomer ved fysisk anstrengelse.

Ved den kliniske undersøgelse blev der ikke fundet patologiske forhold, dvs. ingen hævelse af proc. alveolaris i regionen, ingen smerter og ingen mobilitet af +4,5. Begge tænder reagerede ved pulpavitalitetstest.

Radiologisk undersøgelse i form af panoramaoptagelse samt intraorale optagelser af regionen viste en dråbeformet radiolucens på ca. 2 cm i diameter, lokaliseret mellem rødderne på +4 og +5. Begge tænder divergerede kraftigt således at rødderne lå periferet i opklaringen (Fig. 1). Opklaringen, der strakte sig til apex af tænderne, var velafgrænset og med kortikallamel, hvilket fremgår tydeligst på panoramaoptagelsen.

På baggrund af de kliniske og radiologiske fund var den tentative diagnose: Cystis parodontalis lateralis regio +4,5.

Peroperative fund

Peroperativt fandtes, mod forventning, en fast, velafgrænset og ikke-blødende masse af grålig-hvid farve, der ikke var dækket af knogle. Der var ikke nogen særlig slimhindetilhæftning, og tumor var forholdsvis let at skille fra kaviteten, men alligevel svær at eksstirperes pga. den meget faste konsistens. Den efterladte kavitet var pæn rund og uden mindre kaverner eller udposninger.

Histologiske fund og diagnose

Histologisk sås tumorvæv opbygget af øer og strenge af pladeepitel med ensartede kerner og få, normalt udseende mitosefigurer (Fig. 2). Centralt i epitelformationerne forekom spredte nekrotiske epitelceller. Epitelformationernes afgrænsning mod bindevævet viste ikke uddifferentiering af kubiske/cylindriske epitelceller, som det ses i ameloblastomer. Stroma var et relativt cellerigt, modent kollagent binde-

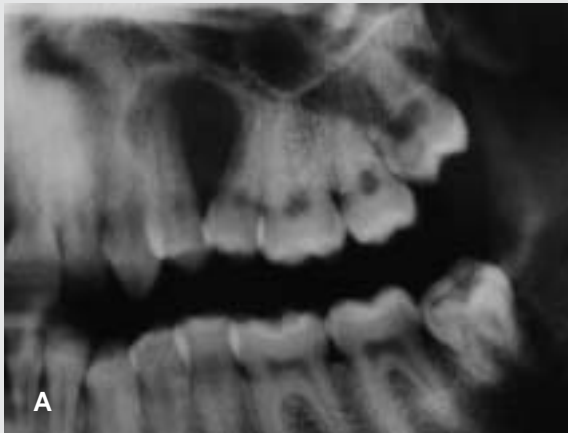


Fig. 1. Røntgenoptagelser af 17-årig pige med SOT, visende velafgrænset radiolucens mellem rødderne af +4,5. A: Udsnit af panoramaoptagelse. B: Intraoral optagelse.

Fig. 1. Radiographs from 17-year-old girl with SOT, showing a well defined radiolucency between the roots of +4,5. A: Section of panoramic radiograph. B: Intraoral radiograph.

væv med spredte lymfocytter, men uden egentlig inflammation. Der kunne ikke konstateres kapseldannelse, og tumorvævet sås ganske tæt på områder der bedømtes som periost. Ingen tegn på malignitet.

Histologisk diagnose: *Squamous odontogenic tumour*.

Efterundersøgelse

Røntgenkontrol seks mdr. senere viste en begyndende knogledannelse og en begyndende genopretning af de divergerende rødder (Fig. 3A). Røntgenkontrol ca. 18 mdr. efter fjernelse af tumor viste en betydelig knogledannelse der udfyldte det meste af kaviteten, samt en fuldstændig genopretning af rødderne på +4,5 (Fig. 3B). Kontrollerne vil fortsættes indtil der er fuldstændig knoglehelning.

Litteraturgennemgang inkl. eget tilfælde

Ætiologi og patogenese

Ætiologien til *squamous odontogenic tumour* (SOT) er ukendt og patogenesen uklar. I litteraturen er der overvejende tilslutning til teorien om at tumor opstår ved en neoplastisk omdannelse af de Malassezske epitelrester i parodontalligamentet. Disse epitelrester er kendt for at have evnen til en reaktiv proliferation ved et inflammatorisk stimulus, som det ses ved dannelse af fx radikulære cyster. Et inflammatorisk stimulus synes imidlertid ikke at være en betingelse for udvikling af SOT (6). Teorier om det gingivale overfladeepitel eller resterne af lamina dentalis som udgangspunkt for SOT er også blevet fremført.

Kliniske karakteristika (Tabel 1)

Alder og køn – SOT er konstateret hos patienter i alderen 8-74 år med en median på 41 år og et gennemsnit på 38 år. Flest ses i aldersgruppen 21-30 år (14 af 40). Tumor ses lidt hyppigere hos mænd med en M:K ratio på 1,3:1.

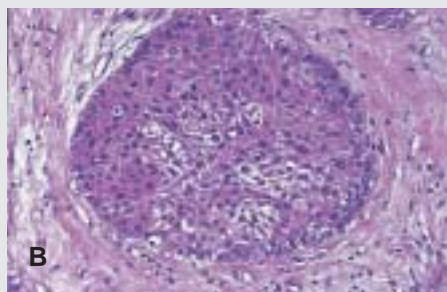
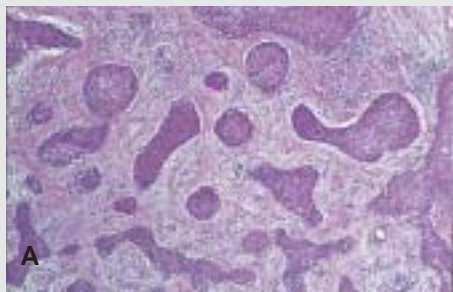


Fig. 2. Histologiske udsnit af operationspræparatet. A: Oversigtsoptagelse, visende pladeepiteløer i et modent bindevævsstroma. B: Højere forstørrelse af en tumorø, opbygget af pladeepitel. HE-farvning.

Fig. 2. Photomicrographs of operative specimen. A: Survey showing islands of squamous epithelium in a fibrous connective tissue stroma. B: Higher magnification of a tumour island. HE-staining.

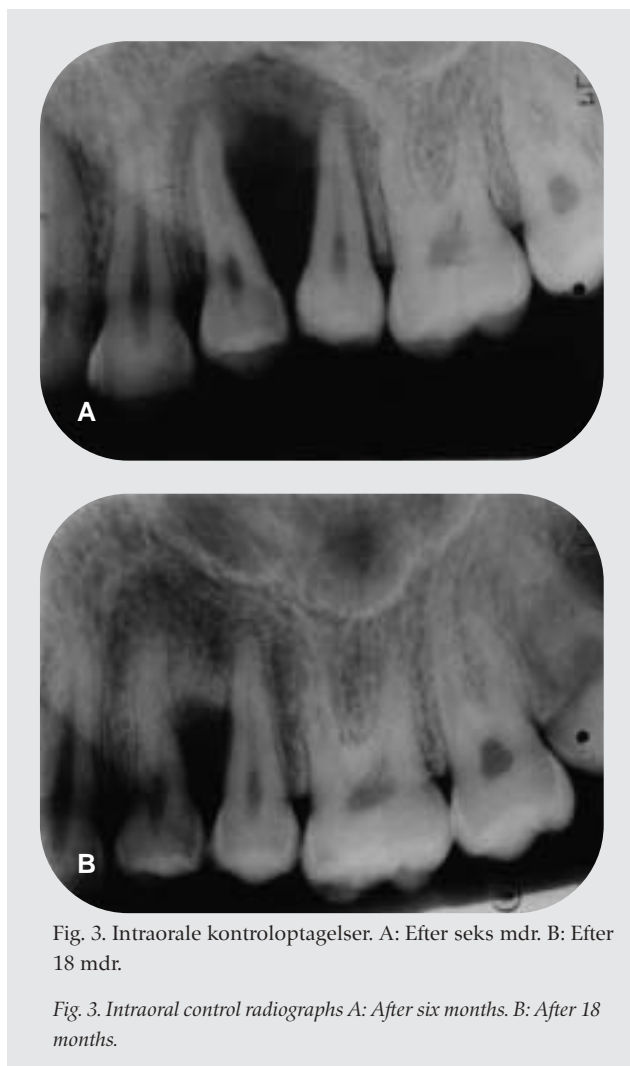


Fig. 3. Intraorale kontroloptagelser. A: Efter seks mdr. B: Efter 18 mdr.

Fig. 3. Intraoral control radiographs A: After six months. B: After 18 months.

Klinisk præsentation – Der er tidligere beskrevet 39 intraossøse og tre ekstraossøse tilfælde af SOT. Den intraossøse form vokser langsomt og giver sjældent symptomer, men der kan ses let volumenforøgelse af proc. alveolaris, mobilitet af de tilgrænsende tænder og evt. moderate smerter. Tumor opdages i en del tilfælde ved rutineundersøgelser i forbindelse med anden behandling.

Der er rapporteret tre ekstraossøse (perifere) tilfælde af SOT (7-9), som ikke er inkluderet i denne litteraturgennemgang. Den ekstraossøse (perifere) variant af SOT forårsager af og til resorption af den underliggende knogle, og undertiden ses en skålformet kavitet, der sandsynligvis opstår pga. tryk fra tumor.

Radiologiske karakteristika og lokalisation (Tabel 1)

Den intraossøse SOT ses oftest som en velafgrænset uniloku-

Tabel 1. Resumé af intraossøse tilfælde af squamous odontogenic tumour fra litteraturen (3-5, samt eget tilfælde).

Antal tilfælde	40	
Køn (n = 39)		
Mænd	23	(59%)
Kvinder	16	(41%)
Gennemsnitlig alder ved diagnose	37,9	
Median	41	
Lokalisation (n = 29)		
Mandibula	15	(52%)
Anteriort	7	
Posteriort	8	
Maxilla	14	(48%)
Anteriort	8	
Posteriort	6	
Multipel forekomst	10	(25%)

lær, afrundet eller trekantet radiolucens, med eller uden kortikallamel, beliggende i proc. alveolaris mellem rødderne af to erupterede permanente tænder. Større forandringer af multilokulært udseende er dog beskrevet, og multiple forandringer spredt i både mandibel og maksil er forekommet.

SOT forekommer næsten ligeligt fordelt i begge kæbers anteriore og posteriore regioner.

I den hårde gane samt i corpus og ramus mandibulae har tumor præsenteret sig i forbindelse med større destruktio-
ner, der har spredt sig fra en primær lokalisation i proc. alveolaris. En beliggenhed uden for tandbærende områder er aldrig beskrevet.

Divergens af tændernes rødder er ikke sjældent forekommende, mens rodresorption kun er rapporteret i et enkelt tilfælde.

Histologiske karakteristika

De karakteristiske histologiske fund ved SOT består i et roma af modent kollagent bindevæv, indeholdende talrige øer, sjældnere strenge, af pladeepitel. Øerne varierer i form og størrelse, og der ses få mitosefigurer i epitelcellerne. Nekrotiske epitelceller, der medvirker til dannelse af mikrocyster i øerne, og enkeltcellekeratinisering er typiske fund. Sjældnere ses forkalkede strukturer i epiteløerne.

Behandling

Den kirurgiske behandling af SOT afhænger af neoplasmets størrelse, men mulighederne er enukleering og curettage. Hemimaksillektomi har været anvendt i et ekstremt tilfælde hvor tumor havde spredt sig til den hårde gane (10).

Efterbehandling af SOT omfatter klinisk og radiologisk

kontrol. Det er ikke fundet nødvendigt at følge patienterne gennem længere tid som ved fx ameloblastomer og keratocyster, som har større recidivtilbøjelighed, idet recidiv kun er beskrevet i et enkelt tilfælde (1).

Bortset fra en enkelt beskrivelse af multipel forekomst af SOT hos tre søskende (11) findes der ikke rapporter om familær forekomst.

Diskussion

I det aktuelle tilfælde blev processen fjernet kirurgisk under den tentative diagnose: cystis parodontalis lateralis. Odontogen keratocyste var også en mulighed, idet små keratocyster ikke sjældent præsenterer sig som en velafgrænset unilokulær radiolucens mellem rødderne af to tænder. Det stod imidlertid klart peroperativt at der ikke var tale om en cyste, da processen var solid. Andre diagnoser måtte derfor overvejes peroperativt, herunder en evt. risiko for malign tumor. I dette tilfælde blev malignitetsrisikoen vurderet til at være meget lav på baggrund af den radiologisk og klinisk velafgrænsede forandring.

Overordnet kunne forandringen således repræsentere enhver benign kæbetumor eller tumorlignende tilstand der manifesterer sig med et radiolucent billede. Af størst interesse var det om forandringen repræsenterede et ameloblastom, idet denne tumor er lokalt infiltrativt voksende og derfor ofte behandles med lokal resektion. Ameloblastomer manifesterer sig typisk som en multilokulær radiolucens, men unilokulære ameloblastomer er dog ikke sjældne og kan ses i relation til tandrødder som beskrevet for SOT. Imidlertid er ameloblastomer langt overvejende lokaliseret til mandiblens posteriore del og ramus. I en nyere oversigtsartikel der inkluderede 3.677 tilfælde fra litteraturen (12) fandtes meget få at være lokaliseret til maksillens præmolarregion. Muligheden for at den aktuelle tumor repræsenterede et ameloblastom syntes således lille.

Adenomatoid odontogen tumor (AOT) er i 75% af tilfældene associeret med en retineret tand, specielt en retineret hjørnetand i overkæben (13). En såkaldt ekstrafollikulær variant er også beskrevet og er radiologisk karakteriseret ved en velafgrænset radiolucens lokaliseret mellem rødderne på to erupterede tænder. Displacering af rødderne er ikke sjælden. Mere end halvdelen af tilfældene af AOT optræder i alderen 13-19 år. Muligheden for at det aktuelle tilfælde præsenterede en AOT var således til stede.

Det odontogene myksom forekommer i alle lokalisationer i kæberne, men hyppigst i mandiblen. Radiologisk kan især de mindre myksomer præsenterer sig som en unilokulær radiolucens, der dog ofte er diffust afgrænset, hvilket afspejler myksomets infiltrative vækst. Større myksomer er oftest

multilokulære og/eller indeholder tynde knogletrabekler, der giver et karakteristisk bikubeudseende.

Cemento-ossificerende fibrom og fokal cemento-ossøsdysplasi i et umodent stadium, hvor hårdtvævsdannelsen ikke har nået et stadium hvor den er erkendelig radiologisk, blev også overvejet. Endelig overvejedes et centralt kæmpecellegranulom, der dog i hovedparten af tilfældene ses i mandiblen.

På baggrund af ovenstående overvejelser blev det peroperativt besluttet at foretage en enukleering uden yderligere indgreb på den omgivende knogle.

Baden et al. fandt i 1993 at der i 25% af alle SOT-tilfælde var mere end én tumor (7). I Tabel 1 ses det at denne frekvens ikke har ændret sig. Den høje frekvens af multiple tilfælde af SOT underbygger at man i tilfælde af denne diagnose skal være omhyggelig i analysen af røntgenoptagelserne.

SOT-lignende proliferationer er fundet i follikulære og radikulære cyster. Det er indtil videre ikke vist at cyster med disse proliferationer opfører sig anderledes end tilsvarende cyster uden SOT-lignende proliferationer. Af samme grund er det opfattelsen at cyster med SOT-lignende proliferationer ikke kan betragtes som SOT, og at det mht. behandling er tilstrækkeligt med cystektomi. Der er ikke konstateret recidiver i forbindelse med disse cyster (14-16).

English summary

Squamous odontogenic tumour. Review of the literature and report of a case

Squamous odontogenic tumour is a rare benign tumour. Only 39 intraosseous cases have been reported since 1975. The present article reports the 40th intraosseous case.

The etiology and pathogenesis of the tumour is unknown. The tumour grows slowly and is often discovered during a routine radiographic examination. In some cases slight symptoms are present such as a painless or mildly painful gingival swelling associated with mobility of associated teeth.

Radiographically a unilocular radiolucency located between the roots of two erupted permanent teeth is a common finding. The tumour has been reported in all areas of tooth-supporting bone, and in 25% of the cases more than one tumour was found.

A case of a 17-year-old girl with a squamous odontogenic tumour is presented. The tumour was located between the roots of +4 and +5, presenting a well-defined unilocular radiolucency. There were no symptoms and no swelling in the area. The tumour was easily enucleated, and the histology was typical of a squamous odontogenic tumour. Healing was uneventful, and follow-up six months after surgery showed bone healing in the area and realignment of the roots of +4,5.

Litteratur

1. Pullon PA, Shafer WG, Elzay RP, Kerr DA, Corio RL. Squamous odontogenic tumor. Report of six cases of a previously undescribed lesion. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1975; 40: 616-30.
2. WHO. Histological typing of odontogenic tumours. World Health Organization. Geneva: Springer Verlag; 1992.
3. Philipsen HP, Reichardt PA. Squamous odontogenic tumor (SOT): a benign neoplasm of the periodontium. A review of 36 cases. *J Clin Periodontol* 1996; 23: 922-6.
4. Kusama K, Kawashima A, Nagai H, Tajima M, Tsuchiya H, Yamaguchi H, et al. Squamous odontogenic tumor of the maxilla: Report of a case. *J Oral Sci* 1998; 40: 119-22.
5. Favia GF, Di Alberti L, Scarano A, Piatelli A. Squamous odontogenic tumour: Report of two cases. *Oral Oncol* 1997; 33: 451-3.
6. Swan RH, McDaniel RK. Squamous odontogenic proliferation with probable origin from the rests of Malassez (early squamous odontogenic tumor?). *J Periodontol* 1983; 54: 493-6.
7. Baden E, Doyle J, Mesa M, Fabie M, Lederman D, Eichen M. Squamous odontogenic tumor. Report of three cases including the first extraosseous case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1993; 75: 733-8.
8. Hietanen J, Lukinmaa PL, Ahonen P, Krees R, Calonius PE. Peripheral squamous odontogenic tumour. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1985; 23: 362-5.
9. Saxby MS, Rippin JW, Sheron JE. Case report: squamous odontogenic tumor of the gingiva. *J Periodontol* 1993; 64: 1250-2.
10. Hooper TL, Sadeghi EM, Pricco DF. Squamous odontogenic tumor. Report of a case with multiple lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1980; 50: 404-10.
11. Leider AS, Jonker LA, Cook HE. Multicentric familial squamous odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1989; 68: 175-81.
12. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. *Oral Oncol* 1995; 31: 86-99.
13. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biological profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991; 20: 149-58.
14. Wright JM Jr. Squamous odontogenic tumorlike proliferations in odontogenic cysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1979; 47: 354-8.
15. Simon JH, Jensen JL. Squamous odontogenic tumor-like proliferations in periapical cysts. *J Endod* 1985; 11: 446-8.
16. Unal T, Gomel M, Gunel O. Squamous odontogenic tumor-like islands in a radicular cysts, report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1987; 45: 346-9.

Forfattere

Rannvá C. Matras, cand.odont.

Varde Kaserne, 5800 Varde

Anders Nattestad¹, specialtandlæge, lektor, ph.d., og Jesper Reibel², professor, lic. et dr. odont.

Afdeling for Tand-, Mund- og Kæbekirurgi¹, og Afdeling for Oral Patologi & Medicin², Odontologisk Institut, Det Sundhedsvidenskabelige Fakultet, Københavns Universitet