

## آملوبلاستومای تک‌سیستی: تشخیص افتراقی و طرح درمان

کرامت یوسفی<sup>۱</sup>، تورج رضا میرشکاری<sup>۲</sup>، شهرزاد ادهمی<sup>۳\*</sup>، مریم‌السادات هاشمی‌پور<sup>۴</sup>

### خلاصه

آملوبلاستومای تک‌سیستی توموری خوش‌خیم با منشأ اپی‌تلیوم ادنتوژنیک است. این ضایعه نادر نیست و اغلب بدون علامت است، اگرچه ضایعات بزرگ‌تر ممکن است موجب تورم بدون درد استخوان فک شوند. در اینجا یک مورد آملوبلاستومای تک‌سیستی با سابقه درد و تورم و لقی دندان‌ها در ناحیه خلف فک پایین ارائه می‌شود که برای تشخیص و مدیریت مناسب بیمار بیوپسی انسینال قبل از عمل و همچنین frozen section در حین عمل انجام شد اما نتایج گزارشات پاتولوژی در هر دو نمونه ارسالی یک آملوبلاستومای فرم توپر (solid) بود. همکار جراح حین عمل متوجه وضعیت خاص تومور می‌شود که دارای یک دیواره فیبروتیک بسیار ضخیم است و در نتیجه جراحی به شیوه انوکلیشن را برای مریض انجام می‌دهد. بنابراین آگاهی از وجود تنوعات هیستوپاتولوژیک ضایعات و همچنین شناخت رادیولوژی‌های ناحیه فکین، تشخیص افتراقی آنها، به همراه خصوصیات بالینی و رادیوگرافیک آنها می‌تواند در ارائه یک طرح درمان مناسب مفید باشد.

واژه‌های کلیدی: آملوبلاستوما، تشخیص افتراقی، طرح درمان

### مقدمه

یک سیست است اما در معاینات هیستوپاتولوژیک در پوشش آن اپی‌تلیوم آملوبلاستوماتوز مشاهده می‌شود که می‌تواند همراه با رشد به داخل لومن یا دیواره هم‌بندی آن باشد (۱،۲).

آملوبلاستومای تک‌سیستی یک نوع از آملوبلاستوما می‌باشد که اولین بار توسط رابینسون (Robinson) و مارتینز (Martinez) در سال ۱۹۷۷ شرح داده شد و اشاره به ضایعه‌ای دارد که از لحاظ مشخصات بالینی و رادیوگرافیک مشابه

۱- استادیار گروه جراحی، دانشکده پزشکی افضلی‌پور، دانشگاه علوم پزشکی کرمان ۲- استادیار گروه پاتولوژی، دانشکده پزشکی افضلی‌پور، دانشگاه علوم پزشکی کرمان ۳- استادیار گروه پاتولوژی دهان، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی کرمان ۴- استادیار گروه بیماری‌های دهان، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی کرمان

\* نویسنده مسؤول، آدرس: گروه پاتولوژی دهان، دانشکده دندانپزشکی، خیابان شفا، کرمان ● آدرس پست الکترونیک: [sh\\_adhami@kmu.ac.ir](mailto:sh_adhami@kmu.ac.ir)

پذیرش مقاله: ۱۳۸۸/۸/۲۸

دریافت مقاله اصلاح شده: ۱۳۸۸/۷/۲۵

دریافت مقاله: ۱۳۸۷/۱۲/۱۱

Paikkat و همکاران در سال ۲۰۰۷ یک مورد آملوبلاستوما در ناحیه قدام فک بالا را گزارش کردند که به عنوان یک کیست رادیکولر تحت درمان انوکلیشن قرار گرفته بود. آنها اهمیت تشخیص افتراقی لوسنسی‌های فکین را مورد تأکید قرار دادند (۷).

Qureshi و همکاران یک مورد آملوبلاستومای کیستی گزارش کرده‌اند که نتیجه بیوپسی اولیه آن سرطان سلول سنگفرشی بود. طبق این گزارش در معاینه داخل دهانی توده‌ای در مخاط گونه مشاهده می‌شده که ناشی از تورم فک تحتانی بوده و تصویر رادیوگرافیک ضایعه یک رادیولوسنسی در اطراف تاج یک دندان نهفته را نشان می‌دهد. ضایعه دنتی ژروس کیست گزارش شده که پس از بررسی هیستوپاتولوژیک آملوبلاستومای سیستیکی گزارش شده و ضایعه توسط انوکلیشن با موفقیت درمان شده است (۸).

Yavgal و همکاران ۲۰۰۹ یک مورد آملوبلاستومای کیستی را در یک کودک ۱۳ ساله گزارش کرده‌اند و توجه به این ضایعات را در سنین پایین به لحاظ رفتار بیولوژیک ویژه آنها از قبیل تحلیل ریشه و درد و تورم مورد تأکید قرار داده‌اند (۹).

Alvarez و همکاران (۲۰۰۳) گزارشی از یک مورد آملوبلاستومای فاقد علامت را که توسط انوکلیشن و فیکسسیون درمان شده بود، ارائه کرده‌اند (۱۰).

گزارش مروری Mendenhall و همکاران در مورد تومورهای آملوبلاستومایی نشان داد که آملوبلاستوماها عمدتاً از نوع توپر هستند و درمان مناسب آنها رزکسیون رادیکال است. در حالی که در آملوبلاستومای کیستیکی انوکلیشن درمان مناسب می‌باشد (۱۱).

در سال ۲۰۰۷ یک مورد آملوبلاستومای درمان شده توسط انوکلیشن و چاقوی پیزوالکتریک که با موفقیت انجام شده بود و هیچ‌گونه عود پی‌گیری از گذشت ۵ سال

به‌طور کلی آملوبلاستوماها تومورهایی خوش‌خیم با منشأ اپی‌تلیوم ادنتوژنیک هستند که به آرامی رشد می‌کنند و علی‌رغم خوش‌خیم بودن توانایی رشد موضعی بالایی دارند و عموماً بدون علامت هستند. در ضایعات بزرگ تورم بدون درد یا اتساع فک یک یافته بالینی عادی است که در صورت عدم درمان منجر به بدشکلی صورت بیمار می‌شوند. درد و پارستزی حتی در تومورهای بزرگ غیرشایع است. حدود نیمی از ضایعات در دهه دوم زندگی ایجاد می‌شوند و جایگاه شایع ابتلای بیش از ۹۰ درصد موارد ناحیه خلف فک تحتانی است. سه نوع هیستوپاتولوژیک ضایعه توصیف شده است. در نوع اول تومور محدود به سطح لومینال است و در نوع میکروسکوپی دوم که به نام آملوبلاستومای اینترالومینال نامیده می‌شود یک یا چند ندول آملوبلاستومایی به‌داخل لومن برجسته می‌شوند. این دو نوع کمتر مهاجم هستند و به‌خوبی توسط انوکلیشن درمان می‌شوند. نوع سوم ضایعه فرم Luminal است که همراه با ارتشاح اپی‌تلیوم آملوبلاستومایی به‌داخل جداره هم‌بندی کیست است که در صورتی که این ارتشاح به داخل استخوان گسترش یابد در مورد شیوه درمان اختلاف نظر است و تعدادی از جراحان رزکسیون مارژینال را توصیه می‌کنند (۳).

Kurokawa و همکاران در سال ۲۰۰۰ درمان موفقیت‌آمیز یک مورد آملوبلاستومای تک‌سیستی را توسط درناژ وانوکلیشن گزارش کردند. آملوبلاستوماها بعضاً تنوعات هیستوپاتولوژیکی را از خود نشان می‌دهند (۴).

در سال ۲۰۰۹ Yoon و همکاران یک مورد آملوبلاستوما با تمایز سلول موکوسی در پوشش آن را گزارش کردند (۵).

در گزارش دیگری در سال ۲۰۰۵ یک ادنتوژنیک کراتوسیست دارای پوشش بسیار ضخیم با درمان محافظه‌کارانه موفقیت‌آمیز و عدم عود در پی‌گیری‌های بعدی معرفی شد (۶).

مشاهده نشده بود توسط Covani و همکاران گزارش شد (۱۲).

#### تشخیص‌های افتراقی لوسنسی‌های ناحیه فک

گزارش حاضر اهمیت تشخیص افتراقی ضایعات رادیولوسنت ناحیه خلف فک را نشان می‌دهد. بیمار حاضر از تورم همراه با درد ناحیه خلف فک پایین شکایت داشت. در رادیوگرافی پانورامیک به عمل آمده از بیمار یک ضایعه رادیولوسنت تک‌حجره‌ای از ناحیه راموس تا سیگموئید ناچ به اندازه تقریبی  $3/5 \times 2/5$  سانتی‌متر با حاشیه و حدود منظم مشاهده می‌شد که موجب جابجایی دندان عقل نهفته بیمار به طرف حاشیه تحتانی فک پایین و لقی دندان‌های مولر اول و دوم بیمار شده بود.

#### سیست‌ها و تومورهای ادنتوژنیک

به دلیل حاشیه منظم و همراه بودن با یک دندان نهفته بررسی‌های رادیوگرافی سیست ادنتوژنیک را مطرح می‌کردند. دنتی ژوروس سیست شایع‌ترین سیست ادنتوژنیک در این ناحیه است که همراه با انبساط بدون درد استخوان است و ممکن است موجب جابجایی قابل توجه دندان درگیر شود. ادنتوژنیک کراتوسیست ۱۰٪ ضایعات سیستیک فک را شامل می‌شود و مکان شایع ابتلا خلف فک پایین است که در ۵۰٪ موارد همراه با یک دندان نهفته می‌باشد. درد و تورم در این دو کیست غیرمعمول است. تحلیل ریشه دندان‌ها در کیست دنتی ژوروس بیشتر اتفاق می‌افتد.

کیست گورلین معمولاً حاوی مقادیر زیادی مواد آهکی است که در فاز اولیه ممکن است به شکل یک ضایعه رادیولوسنت دیده شود.

ضایعات کمتر شایعی نظیر کیست ادنتوژنیک غده‌ای بایستی در تشخیص افتراقی مورد توجه قرار گیرد.

ضایعات خوش‌خیم ادنتوژنیک نیز بایستی در نظر گرفته شود. آمولوبلاستوما و آمولوبلاستیک فیروما هم ممکن است در این ناحیه دیده شود. میانگین سن مبتلایان به

آمولوبلاستوما در زمان تشخیص دهه سوم زندگی است و در مورد آمولوبلاستیک فیروما بیماران قدری جوان‌تر هستند. هر دو تومور انبساط استخوان فک را باعث شده و عمدتاً فاقد علامت درد هستند و اغلب در نمای رادیوگرافی به صورت رادیولوسنسی‌های چند حجره‌ای دیده می‌شوند. آمولوبلاستوما تک‌حجره‌ای ۱۰٪ ضایعات را تشکیل می‌دهد و به لحاظ تصویر رادیوگرافیک با ضایعات کیستیک مشابه می‌باشد اما همراه با تورم استخوان فک است ولی ایجاد درد نمی‌کند. در حالی که بیمار حاضر به مدت یک سال درد داشت و همچنین لقی دندان‌های آسیای بزرگ اول و دوم نیز اتفاق افتاده بود.

تومور پیندبورگ در افراد میانسال ایجاد می‌شود و همراه با تورم بدون درد است.

میکرومای ادنتوژنیک در افراد جوان ایجاد می‌شود و همراه با تورم استخوانی است و جابه‌جایی دندان‌ها شایع می‌باشد اما درد یک یافته غیرمعمول است و در نمای رادیوگرافی ممکن است به صورت یک رادیولوسنسی به‌خوبی محدود شده دیده شود اگر چه غالباً به صورت یک رادیولوسنسی چندحجره‌ای مشاهده می‌شود.

آدنوماتوئید ادنتوژنیک تومور نیز بایستی در نظر گرفته شود. اما جایگاه شایع ابتلای آن در ناحیه قدام فک بالا است و اغلب در خانم‌ها ایجاد می‌شود و در ۷۵ درصد موارد همراه با یک دندان نهفته است و در رادیوگرافی گسترش ضایعه در امتداد سطح ریشه دیده می‌شود.

#### تومورهای با منشأ غیرادنتوژنیک

ژانت سل گرانولوما معمولاً به صورت رادیولوسنسی چند حجره‌ای است و در ناحیه قدام فک پایین ایجاد می‌شود و در بعضی موارد منجر به جابه‌جایی دندان‌ها می‌شود. سن بیمار در تشخیص ضایعه دارای اهمیت است.

Osstying fibroma در افراد میانسال ایجاد می‌شود و در مراحل اولیه به صورت یک ضایعه رادیولوسنت عمدتاً در

در آسپیراسیون ضایعه مایع کهربایی رنگ خارج شده بود که البته با توجه به اینکه در آمولوبلاستومای توپر تشکیل کیست‌های بسیار بزرگ امری شایع است با توجه به نتایج حاصل از بیوپسی تا حدودی قابل توجه بود. کیست‌ها و تومورهای متعددی با آمولوبلاستومای سیستمیک در تشخیص افتراقی قرار می‌گیرند. راهکار شناسایی ضایعات فوق تشخیص هیستوپاتولوژیک به شیوه سنتی است و روش‌های ملکولی و ایمونوهیستوشیمی دارای ارزش تشخیصی نیستند (۱۳).

پوشش فیروزه بسیار ضخیم کیست که حاوی انفیلتراسیون وسیع اپی‌تلیوم آمولوبلاستومایی بود، عامل مهمی در عدم گسترش ضایعه به داخل ساختارهای استخوانی مجاور بود. نکته مهم در این گزارش این است که حین جراحی نیز بیوپسی frozen انجام شد و مجدداً یک آمولوبلاستومای توپر گزارش شد.

علی‌رغم پاسخ پاتولوژیست، جراح حین عمل تغییرات ایجاد شده در ناحیه درگیر استخوان را متفاوت از سایر ضایعات آمولوبلاستومایی توپر می‌بیند و وجود بافت فیروزی بسیار ضخیم و همچنین تصویر رادیوگرافیک ضایعه را مد نظر قرار داده و اقدام به انوکلیشن ضایعه می‌کند. این در حالی است که رزکسیون مارژینال دفورمیتی صورت را باعث می‌شود و به پیوند استخوان نیاز است.

Meredith یک مورد ادنتوژنیک کراتوسیست را با دیواره بسیار ضخیم گزارش کرده است. معمولاً در هنگام جراحی این کیست به دلیل نازک و شکننده بودن دیواره همبندی آن بخشی از ضایعه در استخوان باقی می‌ماند که یکی از دلایل عمده عود بالا و مکرر این ضایعه است که بالطبع در بعضی از موارد نیاز به جراحی‌های وسیع مانند رزکسیون مارژینال است. ولی در این مورد به دلیل دیواره بسیار ضخیم ضایعه توسط انوکلیشن به‌طور کامل خارج شد.

خلف فک پایین دیده می‌شود که همراه با تورم بدون درد است.

مالفورماسیون‌های عروقی نیز بایستی در نظر گرفته شوند. نداشتن سابقه خون‌ریزی bruit یا tirl و عدم درگیری مخاط یا پوست احتمال این ضایعات را به حداقل می‌رساند. به دلیل وجود حاشیه مشخص ضایعه و عدم وجود تغییرات حسی ضایعات بدخیم اولیه و متاستاز دهنده در تشخیص افتراقی این ضایعه قرار نمی‌گیرند.

### بحث و نتیجه‌گیری

آمولوبلاستوما یک تومور خوش‌خیم با منشأ اپی‌تلیوم ادنتوژنیک است فرم کیستیک آن به لحاظ اشکال بالینی، رادیوگرافیک، پاتولوژیک و پاسخ به درمان ملاحظات جداگانه‌ای را می‌طلبد.

تصویر رادیوگرافی ضایعه به صورت یک رادیولوسنسی تک‌حجره‌ای و در بعضی موارد چندحجره‌ای است و جایگاه شایع ابتلا خلف فک پایین می‌باشد. بیمار حاضر مبتلا به یک ضایعه رادیولوسنت در خلف فک پایین با حدود واضح و منظم بود که موجب جابه‌جایی دندان عقل سمت چپ به طرف حاشیه فک پایین شده بود. از بین رفتن فضای پرپودونتال در مزینال دندان آسیایی دوم مشاهده می‌شد. تورم استخوان در سطح باکال و لینگوال اتفاق افتاده بود و لقی دندان‌های آسیای اول و دوم دیده می‌شد که همراه با درد شدید برای بیمار بود. به‌طور کلی آمولوبلاستوماها تومورهای خوش‌خیم با رشد آهسته و فاقد درد می‌باشند. همچنین لقی دندان نیز امری غیرمعمول است. در گزارش بیوپسی انسیتوزال نیز به دلیل ارتشاح وسیع اپی‌تلیوم آمولوبلاستومایی به داخل بافت بسیار ضخیم و فیروزه آن منجر به تشخیص نامناسب به عنوان یک تومور توپر شده بود در حالی که طبیعت واقعی تومور پس از بررسی همه نمونه مشخص می‌شود (۱۳).

پیزوالکتریک را پس از انوکلیشن به عنوان یک راه حل مطمئن به منظور جلوگیری از عود ضایعه پیشنهاد کرده اند (۱۲). البته در مورد بیمار حاضر پس از درمان توسط انوکلیشن و کورتاژ استخوان و گذشت ۴۰ ماه در پی گیری های بعدی هیچ گونه عودی مشاهده نشد.

Qureshi و همکاران یک مورد از آمولوبلاستومای کیستیک را که در بیوپسی انسیتزنال به عمل آمده سرطان سلول سنگفرشی گزارش شده بود و پس از بررسی های دقیق بالینی و رادیوگرافیک نتیجه نهایی متفاوت از تشخیص اولیه بود، را گزارش کرده اند (۸).

بنابراین آگاهی از تنوعات هیستوپاتولوژیک ضایعات و همچنین شناخت رادیولوژی های ناحیه فکین و تشخیص افتراقی آنها همراه با ویژگی های بالینی و نمای رادیوگرافیک و هیستوپاتولوژیک آنها می تواند باعث تصمیم گیری برای یک درمان مناسب شوند.

آمولوبلاستوماها عمدتاً تومورهای بدون علامت هستند (۱،۳) اما Yavgal و همکاران تحلیل ریشه و درد و تورم را به عنوان یک رفتار بیولوژیک غیر معمول در سنین پایین عنوان کرده اند (۹). البته بیمار حاضر نیز شکایت از درد و تورم و لقی مولرهای ناحیه مبتلا را داشت.

Paikkat و همکاران ۲۰۰۷ یک مورد آمولوبلاستوما در ناحیه قدام فک بالا را گزارش کرده اند به عنوان یک کیست رادیکولر تحت درمان انوکلیشن قرار گرفته بود. آنان اهمیت تشخیص افتراقی لوسنسی های فکین را مورد تأکید قرار داده اند (۷).

آمولوبلاستوماها تومورهای فاقد علامتی هستند که بسته به فرم هیستوپاتولوژیک آنها درمان های متفاوتی را می طلبند درمان مناسب در فرم توپررز کسیون رادیکال است (۱۱،۳) در حالی که آمولوبلاستومای کیستیک توسط کورتاژ و انوکلیشن به سادگی درمان می شود با وجود این Covani و همکاران استفاده از چاقوی

### Unicystic Ameloblastoma: Differential Diagnosis and Treatment Planning

Yousefi K., M.D.<sup>1</sup> Mirshekari T., M.D.<sup>2</sup>, Adhami Sh., D.D.S.<sup>3</sup>, Hashemipour M., D.D.S.<sup>4</sup>

1. Assistant Professor of Surgery, Afzalipour School of Medicine, Kerman University of Medical Sciences, Kerman, Iran
2. Assistant Professor of Pathology, Afzalipour School of Medicine, Kerman University of Medical Sciences, Kerman, Iran
3. Assistant Professor of Oral Pathology, School of Dentistry, Kerman University of Medical Sciences, Kerman, Iran
4. Assistant Professor of Oral Medicine, School of Dentistry, Kerman University of Medical Sciences, Kerman, Iran

\* Corresponding author, e-mail: sh\_adhami@kmu.ac.ir

(Received: 2 March 2009 Accepted: 19 Nov. 2009)

### Abstract

Unicystic ameloblastoma is a tumor of odontogenic origin. It is not a rare neoplasm and most often the lesion is asymptomatic. However, large lesions may cause painless swelling of the jaws. Here we report a case of unicystic ameloblastoma with pain, swelling of the posterior jaws along with teeth mobility. Samples of incisional biopsy of the lesion and also intraoperative frozen section were sent for pathology and for both samples pathology report was solid ameloblastoma. Due to observing a thick fibrotic wall during the operation, the surgeon decided to perform enucleation.

Knowing histopathologic variations of odontogenic tumors and also knowledge about differential diagnosis and clinical and radiographic features can lead to appropriate diagnosis and treatment planning.

**Keywords:** Ameloblastomas, Differential diagnosis, Treatment planning

Journal of Kerman University of Medical Sciences, 2010; 17(2): 175-180

## References

1. Robinson L, Martinez M.G. Unicystic ameloblastoma: A prognostically distinct entity. *Cancer* 1977; 40(5): 2278-85.
2. Neville B.W., Damm D.D., Allen C.M., Bouquot JE. Oral and maxillofacial pathology. 2<sup>nd</sup> ed., Philadelphia, W.B. Saunders Co., 2002; pp533-88.
3. Regezi J.A., Sciubba J.J., Jordan R.C.K. Oral pathology: clinical pathologic correlations. California, Saunders Co., 2008; p545.
4. Kurokawa H, Inshida C, Murata T, Yamashita Y, Tabe F, Miura K, et al. A case report of unicystic ameloblastoma treated with dredging method. *J Kyushi Dent Soc* 2000; 54(3): 253-7.
5. Yoon J.H., Ahn S.G., Kim S.G. Mucous cell differentiation in a unicystic ameloblastom. *Int J Oral Maxilofac Surg* 2009; 38(1): 95-7.
6. August M, Caruso P.A, Faquin WC. Case 40-2005: An 18 year-old man with a one month history of non tender left mandibular swelling. *N Engl J Med* 2005; 353(26): 2798-805.
7. Paikkat V.J., Sreedharran S, Kannan V.P. Unicystic ameloblastoma of the maxilla: A case report. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2007; 25(2): 106-10.
8. Qureshi S.S, Qureshi S.S., Mehdi S.S., Kane S.V. Unicystic ameloblastoma of the mandible masquerading as carcinoma of the oral cavity in a 10-year-old girl. *J Am Surgery* 2008; 196(3): 7-9.
9. Yavagal C, Anegundi R, Shetty S. Unicystic plexiform ameloblastoma: an insight to pediatric dentists. *J Indian Soc Pedod Prev Dent* 2009; 27(1):70-4.
10. Alvarez P, Bander A, Goldberg P, Gutierrez AM. Ameloblastoma unicystico. Report de un caso. *Rev ADM* 2003; 60(4): 145-90.
11. Mendenhall WM, Werning JW, Fernandes R, Malyapa RS, Mendenhall NP. Ameloblastoma. *Am J Clin Oncol* 2007; 30(6): 645-8.
12. Covani U, Barone A. Piezosurgical treatment of unicystic ameloblastoma. *J Periodont* 2007; 78(7): 1342-7.
13. Regesi JA. Odontogenic cysts, odontogenic tumors, fibroosseous and giant cell lesions of the jaws. *Mod Pathol* 2002; 15(3): 33-41.