

## میگزوفیبروم ادنتوژنیک فک پایین همراه با دندان مولر سوم رویش نیافته: گزارش مورد

مسعود حاتمی\*#، آتس سا پاک فطرت\*\*، آدینه جوادیان لنگرودی\*\*\*، زهرا دلاوریان\*\*، امین راهپیمان\*\*\*\*،

نصرالله ساغروانیان\*\*\*\*\*، امیر حسین جعفریان\*\*\*\*\*

\* دستیار تخصصی گروه بیماری‌های دهان، فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران  
 \*\* دانشیار بیماری‌های دهان، فک و صورت، مرکز تحقیقات بیماری‌های دهان، فک و صورت، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران  
 \*\*\* استادیار رادیولوژی دهان، فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران  
 \*\*\*\* دانشیار جراحی فک و صورت، مرکز تحقیقات بیماری‌های دهان، فک و صورت، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران  
 \*\*\*\*\* استادیار آسیب شناسی دهان، فک و صورت، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران  
 \*\*\*\*\* استادیار گروه آسیب شناسی، بیمارستان قائم (عج)، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی مشهد، مشهد، ایران

تاریخ ارائه مقاله: ۹۴/۳/۱۷ - تاریخ پذیرش: ۹۴/۱۰/۱

### Odontogenic Myxofibroma of the Mandible Along With an Unerupted Third Molar Tooth: Report of a Case

Masoud Hatami\*#, Atessa Pakfetrat\*\*, Adineh Javadian Langroodi\*\*\*, Zahra Delavarian\*\*,  
 Amin Rahpeyma\*\*\*\*, Nasrollah Saghravani\*\*\*\*\*, Amir hosein Jafarian\*\*\*\*\*

\* Postgraduate Student, Dept of Oral & Maxillofacial Medicine, School of Dentistry, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

\*\* Associate Professor, Dept of Oral & Maxillofacial Medicine, Oral & Maxillofacial Diseases Research Center, School of Dentistry, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

\*\*\* Assistant Professor, Dept of Oral & Maxillofacial Radiology, School of Dentistry, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

\*\*\*\* Associate Professor, Dept of Oral & Maxillofacial Surgery, Oral & Maxillofacial Diseases Research Center, School of Dentistry, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

\*\*\*\*\* Assistant Professor, Dept of Oral & Maxillofacial Pathology, School of Dentistry, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

\*\*\*\*\* Assistant Professor, Dept of Pathology, Ghaem Hospital, School of Medicine, Mashhad University of Medical Sciences, Mashhad, Iran.

Received: 7 June 2015 ; Accepted: 22 December 2015

**Introduction:** Odontogenic Myxofibroma (OMF) is an extremely rare benign tumor which only less than 40 cases have been reported throughout the world. OMF represents a locally aggressive behavior and has a high recurrence rate.

**Case report:** In this case report, a case of OMF of the lower jaw that was associated with unerupted lower third molar tooth, is reported. Cone Beam Computed Tomography (CBCT) showed that the radiolucent area of the lesion was separated from the follicular space of the unerupted tooth. Histopathologic evaluation of the lesion confirmed the OMF and eventually the tumor was removed completely by block resection. No evidence of recurrence was noted following sixteen months of surgery.

**Conclusion:** The radiologic relationship of the OMF with crypt space of unerupted or impacted tooth, have not already been mentioned in literatures. To establish an accurate diagnosis, Correlations of clinical, radiologic and histopathologic findings are essential. Magnetic resonance imaging (MRI) is a beneficial modality to evaluate the tumor extension to the soft tissue, discriminate it from other odontogenic lesions and reduce the recurrence rate of the tumor.

**Key words:** Odontogenic myxofibroma, unerupted tooth.

# Corresponding Author: hatamim911@mums.ac.ir

J Mash Dent Sch 2015; 40(1): 93-104.

#### چکیده

**مقدمه:** میگزوفیبروم ادنتوژنیک (Odontogenic Myxofibroma) توموری خوش‌خیم و نادر می‌باشد به طوری که کمتر از ۴۰ مورد از آن در سراسر دنیا گزارش شده است. این تومور به طور موضعی رفتاری مهاجم از خود نشان می‌دهد و عود بالایی دارد.

# مولف مسؤول، نشانی: مشهد، دانشکده دندانپزشکی، گروه بیماری‌های دهان، فک و صورت، تلفن: ۰۹۱۲۱۹۶۲۷۶۲

E-mail: hatamim911@mums.ac.ir

**گزارش مورد:** در این مطالعه، موردی از تومور میگزوفیبروم ادنتوزنیک فک پایین گزارش شد که در همراهی با دندان مولر سوم رویش نیافته بود. تصویربرداری CBCT (Cone Beam Computed Tomography) نشان داد که فضای رادیولوسنت ضایعه از فضای فولیکولر دندان رویش نیافته جدا است. بررسی هیستوپاتولوژی ضایعه، میگزوفیبروم را تأیید نمود و سرانجام جراحی کامل ضایعه به روش بلوک رزکسیون صورت گرفت و تا ۱۶ ماه پس از جراحی، هیچ شواهدی از عود را نشان نداد.

**نتیجه گیری:** تاکنون در مطالعات گذشته به ارتباط رادیوگرافیک میگزوفیبروم ادنتوزنیک با اپیتلیوم فولیکولر دندان رویش نیافته یا نهفته اشاره‌ای نشده است. جهت تشخیص دقیق ضایعه، انطباق دادن یافته‌های بالینی، تصویربرداری و هیستوپاتولوژی با یکدیگر الزامی است.

**کلمات کلیدی:** میگزوفیبروم ادنتوزنیک، دندان رویش نیافته.

مجله دانشکده دندانپزشکی مشهد / سال ۱۳۹۵ دوره ۴۰ / شماره ۱: ۹۳-۱۰۴.

## مقدمه

غیراختصاصی بوده و از یک ضایعه لوسنت تک حفره‌ای تا یک ضایعه چند حفره‌ای متغیر است.<sup>(۱۱و۹و۸)</sup> اختلاف نظرهای زیادی درباره الگوی داخلی و حدود آن در نمای رادیوگرافیک وجود دارد<sup>(۹)</sup> ولی معمولاً حدود رادیوگرافیک آن، مشخص (Well-defined) بوده و ساختار داخلی آن به چند نوع مختلف می‌تواند تقسیم شود.<sup>(۱۳و۴)</sup>

بر اساس وجود الگوی مختلف سپتاهای، نمای رادیوگرافیک معمول میگزوم ادنتوزنیک در برخی مقالات به ۵ نوع مختلف تقسیم شده است که عبارتند از<sup>(۱۳و۴):</sup> نوع اول در این نوع، ضایعه رادیولوسنت تک حفره‌ای بدون ترابکول و سپتا ظاهر می‌شود. در نوع دوم در داخل رادیولوسنتی تک حفره‌ای، سپتاهای رشته‌ای ظریفی دیده می‌شود که بیشتر در حواشی ضایعه متمرکز می‌شوند تا در مرکز آن. در نوع سوم ضایعه چند حفره‌ای با ترابکولاسیون زاویه‌دار مستقیم (Straight and angulated) با اشکال مثلثی و یا مربعی، مشابه نمای راکت تنیس، دیده می‌شود و نمای تیپیک (Characteristic) میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوزنیک بوده ولی کمتر دیده می‌شود و نوع چهارم یک ضایعه رادیولوسنت چند حفره‌ای است که ترابکول‌های منحنی شکل آن فضاهای بیضی- دایره‌ای می‌سازد و الگوی لانه زنبوری یا حباب صابونی را تقلید می‌کند.<sup>(۱۳و۴)</sup> نوع پنجم نیز ترکیبی از نماهای فوق را دارد.<sup>(۴)</sup>

میگزوفیبروم ادنتوزنیک یک تومور خوش‌خیم نادر بوده که جزء زیرگروه کوچکی از میگزوم‌های ادنتوزنیک می‌باشد.<sup>(۱)</sup> بر اساس طبقه بندی سازمان بهداشت جهانی (WHO) در سال ۲۰۰۵، میگزوفیبروم، معادل میگزوم ادنتوزنیک در نظر گرفته می‌شود.<sup>(۲)</sup> میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوزنیک حدود ۶-۳ درصد کل تومورهای ادنتوزنیک را تشکیل می‌دهد و تصور می‌شود که منشأ آن از قسمت مزانشیمال فولیکولر دندان در حال تکامل یا از لیگامان پریودونتال باشد.<sup>(۳-۶)</sup> محل شایع میگزوم/میگزوفیبروم در استخوان‌های فک و صورت، در محل در بردارنده دندان‌ها (Tooth bearing area) بوده و در سایر نواحی بدن به ندرت دیده می‌شود.<sup>(۷-۱۰)</sup> این تومور علی‌رغم رشد آهسته‌ای که دارد، به طور موضعی مهاجم است و سبب اتساع استخوان‌های درگیر می‌شود.<sup>(۹و۷)</sup> میانگین سنی بروز آن ۳۰-۲۵ سال بوده و بیشتر در دهه دوم و سوم زندگی رخ می‌دهد. این تومور به ندرت، افراد زیر ۱۰ و بالای ۵۰ سال را گرفتار می‌کند و تمایل به جنس و یا نژاد خاصی ندارد.<sup>(۱۱و۸و۷)</sup>

میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوزنیک مانند سایر تومورهای ادنتوزنیک، علائم و نشانه خاصی به جز تورم ندارد و معمولاً اولین علامتی که از خود نشان می‌دهد آسیمتری فک با رشدی آهسته است.<sup>(۱۲و۱۱و۸)</sup> نمای رادیوگرافیک آن

پرفوراسیون کورتکس شده یا انواعی که حدود نامشخص تری در رادیوگرافی دارند (مخصوصاً نوع ماگزیلاری تومور)، رفتار مهاجم تری داشته و بهتر است به روشی رادیکال، جراحی شوند. به دلیل عود بالا شایع ترین درمان توصیه شده، رزکسیون با مارژین وسیع می باشد.<sup>(۸و۹)</sup> علی رغم عود بالای آن (به طور میانگین ۲۵ درصد)، پیش آگهی خوبی در انتظار بیمار است و متاستاز نمی دهد.<sup>(۱۱و۱۲)</sup> مقاله حاضر گزارشی از یک مورد میگزوفیبروم ادنتوژنیک مرکزی است که سبب جابه جایی دندان عقل رویش نیافته فک پایین شده و با فولیکول دندان مورد نظر از لحاظ رادیولوژیک ارتباطی ندارد.

#### گزارش مورد

بیمار پسر ۱۵ ساله ای بود که با شکایت از تورم بدون درد سمت چپ خلف فک پایین، در تاریخ ۲۸ آبان ماه سال ۱۳۹۲ در بخش بیماری های دهان دانشکده دندانپزشکی مشهد مراجعه کرد. وی از ۷ ماه پیش متوجه افزایش اندازه ناحیه زاویه فک پایین سمت چپ شده بود. رشد ضایعه ابتدا سریع بوده و طی ماه های اخیر به اندازه ثابتی رسیده بود. وی به مراکز درمانی دندانپزشکی عمومی و تخصصی متعددی مراجعه کرده که در معاینات اولیه برای بیمار رادیوگرافی پانورامیک درخواست شده بود. وی به بیماری سیستمیک خاصی مبتلا نبود.

در معاینه بالینی، آسیمتری صورت در ناحیه زاویه فک پایین (Mandibular Angle) در سمت چپ دیده می شد (تصویر ۱). در لمس خارج دهانی، تورم با قوام سخت استخوانی که از زاویه فک تا نواحی دندان های پره مولر را درگیر کرده، احساس می شد و در لمس دردناک نبود. پوست روی تورم هیچ تفاوتی با نواحی اطراف نداشت و دمای آن نیز مشابه سایر نواحی تحت فکی و تحت چانه ای بود. گره های لنفاوی ناحیه مبتلا مانند نواحی تحت

در مطالعات متعدد همراهی میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوژنیک با دندان رویش نیافته یا نهفته، با شیوع تقریبی ۱۶/۷-۵ درصد گزارش شده است.<sup>(۴)</sup> فولیکول دندان که معمولاً حین خارج کردن دندان های نهفته دیده می شود، به دلیل نمای میگزوماتوزی که دارد می تواند اشتباهاً به جای میگزوم ادنتوژنیک گزارش شود. جهت پیشگیری از این اشتباه بایستی یافته های پاتولوژیک با بررسی های بالینی و رادیوگرافیک مطابقت داده شود. از نظر رادیوگرافیک، فولیکول دندان یک رادیولوسنسی نازک هلالی شکل است که مرز مشخصی داشته و اطراف تاج دندان نرویدده یا نهفته را در برمی گیرد. برخلاف آن میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوژنیک اندازه رادیولوسنسی بزرگ تر و مرز نامشخص تری داشته و سبب اتساع کورتکس استخوان می شود.<sup>(۴)</sup> با وجود گزارشات متعدد تا آنجایی که اطلاع داریم هنوز راجع به ارتباط آن با اپیتلیوم فولیکول دندان چه از نظر نمای رادیوگرافیک و چه از نظر نمای بافت شناسی بحث نشده است.

نمای Gross ضایعه یک بافت ژلاتینی شل و چسبنده به رنگ خاکستری سفید با یک نمای موسینی شفاف است<sup>(۱۱و۱۲)</sup> که توسط کپسول احاطه نمی شود. در بررسی ریزی، سلول های گرد، دوکی و ستاره ای شکلی به صورت نامنظم توسط مقادیر زیادی بافت بین سلولی شل میگزوماتوز احاطه شده است.<sup>(۱۵و۱۶)</sup>

درمان این تومور شامل جراحی و برداشت کامل ضایعه است که برحسب اندازه، محل درگیری تومور و مشی بیولوژیک تومور روش جراحی آن از یک کورتاژ محافظه کارانه در ضایعات کوچک تا رزکسیون سگمنتال و رادیکال در انواع بزرگتر، متغیر است.<sup>(۹و۱۳)</sup> با بررسی مارژین ضایعه در رادیوگرافی می توان تا حدودی به مشی بیولوژیک تومور پی برد و طبعاً انواعی که سبب



تصویر ۲: در نمای داخل دهانی پری فضای وستیبول باکال مشهود است و دندان مولر سوم دیده نمی‌شود.

در نمای پانورامیک، بر اساس روش آنالیز قدم به قدم در مرحله اول به لوکالیزاسیون ضایعه می‌پردازیم. محل ضایعه در سمت راست و خلف مندیبل با گسترش قدامی - خلفی از دندان مولر اول تا ناحیه زیر کرونیوید (Subcoronoid area) و ناحیه سیگموئید ناچ (Sigmoid notch) بود. گسترش عمودی ضایعه از کرسٹ آلوئول تا ابتدای بردر کورتیکالی تحتانی بود (تصویر ۳).



تصویر ۳: نمای پانورامیک سمت چپ که رادیولوسنسی اطراف تاج دندان مولر سوم رویش نیافته به همراه سپتاهای داخلی دیده می‌شود.

فکی و ساب متال و ... قابل لمس نبود. در معاینه داخل دهانی پری وستیبول با کال سمت چپ فک پایین دیده می‌شد. لمس ناحیه وستیبول باکال و لینگوال لثه آلوئولی نشان دهنده یک تورم (Expansion) استخوانی با حدود نامشخص و غیردردناک بود (تصویر ۲) این تورم از قدام راموس در ناحیه تنه مندیبل شروع شده و تا دیستال دندان پره مولر دوم ادامه می‌یافت و در تمامی نواحی، تورم مورد نظر قوام یکسانی داشت. مخاط نواحی درگیر و سایر نواحی دهان سالم بوده و دندان‌های بیمار تا دندان مولر دوم تقریباً رویش یافته بودند ولی هیچ آثاری از رویش دندان مولر سوم این ناحیه و یا دندان‌های مولر سوم سایر کوادرنال‌های دیگر فکین دیده نمی‌شد. کمی از بافت اپرکولومی، روی کاسپ‌های دیستال دندان مولر دوم را پوشانده بود و این دندان یک میلی‌متر لقی افقی بدون Pumping داشت. همچنین دندان‌های سمت مبتلا در دق حساس نبودند.



تصویر ۱: در نمای خارج دهانی آسیمتری در ناحیه زاویه فک پایین در سمت چپ دیده می‌شود.

می‌شد ولی تحلیل ریشه در دندان‌های درگیر ضایعه دیده نشد. جهت بررسی دقیق تر حدود گسترش ضایعه، وجود احتمالی پرفوراسیون کورتکس استخوانی، بررسی ارتباط با فولیکول دندان عقل و بررسی دقیق تر ساختار داخلی، تصویربرداری CBCT انجام شد. در مقاطع Cross-sectional، تورم قابل ملاحظه باکولینگوالی کورتکس (بیشتر سمت باکال) همراه با نازک شدگی و آروزیون در برخی نواحی ولی بدون شواهدی از پرفوراسیون و آثار تخریبی مشهود بود. همچنین در این تصاویر، غیرمرتبط بودن ضایعه با فولیکول مولر سوم با توجه به حضور کریپت اطراف دندان، تأیید شد (تصویر ۴). در رابطه با بررسی ساختار داخلی در این تصاویر، می‌توان به وجود یک سپتوم با ضخامت متوسط و مستقیم در حاشیه رادیولوسنسی اشاره کرد (تصویر ۵).

با توجه به کلیشه پانورامیک و CBCT، تشخیص‌های افتراقی ضایعه شامل آملوبلاستیک فیروما، Keratocystic Odontogenic Tumor (KOT) و میگزوم ادنتوژنیک بود. آملوبلاستیک فیروما به لحاظ موقعیت ضایعه و نزدیک بودن آن به کرسٹ آلئوئول و وجود Expansion قابل ملاحظه در تشخیص افتراقی اول مطرح شد.

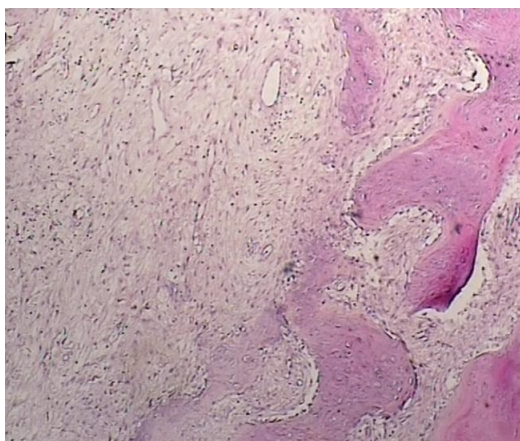
با توجه به سن بیمار، محل ضایعه، و الگوی داخلی ضایعه و عدم حضور تحلیل ریشه، KOT و میگزوم ادنتوژنیک تشخیص مناسبی به نظر می‌رسید. خصوصیات کلینیکی و رادیوگرافی میگزوم ادنتوژنیک و KOT تقریباً مشابه هم است ولی وجود Expansion زیاد برای آنها مورد انتظار نیست. البته در بیمار ما مشاهده یک سپتوم مستقیم و خشن در نمای CBCT، کمی تشخیص را به سمت میگزوم ادنتوژنیک هدایت می‌کرد (تصویر ۵).

از لحاظ ارتباط با دندان، ضایعه در اکلوزال دندان نهفته مولر سوم واقع شده بود و در نگاه اول به نظر می‌رسید که در فضای فولیکول دندان مذکور قرار گرفته و ارتباط پری کروئال دارد، ولی با دقت بیشتر متوجه حضور کریپت کورتیکالی اطراف فولیکول در دو طرف پروگزیمال دندان تا نزدیک به سطح اکلوزال شدیم و فقط در قسمتی از سطح اکلوزال این کریپت مشاهده نمی‌شد (تصویر ۴) با توجه به اینکه ضایعه‌ای با چنین اندازه قابل ملاحظه و گسترش زیاد، دور از ذهن است که تنها در این فضای کوچک از فولیکول رشد کرده باشد، احتمال پری کروئال بودن آن کم‌رنگ شد. در بررسی حدود ضایعه، یک حاشیه مشخص و کورتیکالی در اطراف آن قابل رؤیت بود. نمای داخلی به صورت یک رادیولوسنسی همراه با سپتای پراکنده و با ضخامت متوسط بود که بیشتر در حاشیه ضایعه قرار گرفته بود.

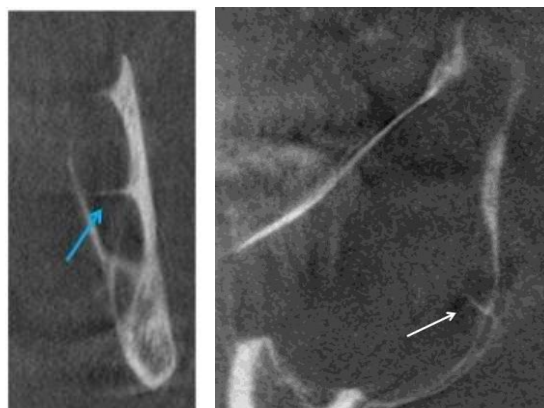


تصویر ۴: در مقاطع مختلف CBCT، فضای فولیکولر کریپت دندان مولر سوم مشخص شده است. A-مقطع ساژیتال B-مقطع کروئال C-مقطع آگزیمال

از اثرات ضایعه بر ساختمان‌های مجاور می‌توان به جابه‌جایی شدید کانال عصب آلئوئولر تحتانی در جهت آپیکالی، جابه‌جایی قدامی خفیف دندان‌های مولر اول و دوم و نیز جابه‌جایی آپیکال مولر سوم اشاره کرد. Expansion لبه فوقانی ریج در کلیشه پانورامیک مشاهده



تصویر ۶: مقطع میکروسکوپی نمونه بیوپسی شده از دیواره باکال که حاوی ترابکول‌های استخوانی طبیعی در سمت چپ تصویر می‌باشد.



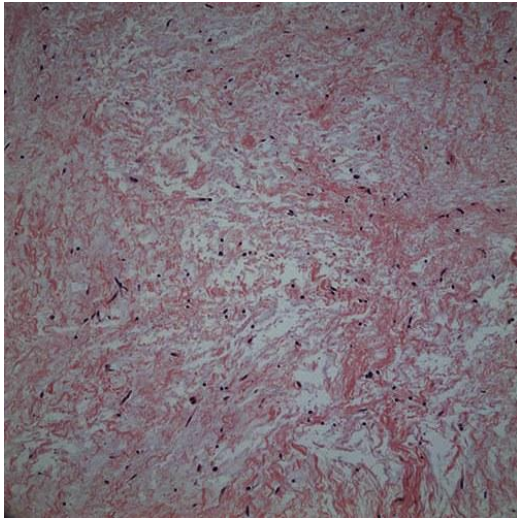
تصویر ۵: در تصویر سمت راست مقطع سازیتال CBCT در ناحیه زاویه فک پایین و در حاشیه رادیولوسنیسی تومور، سپتای مستقیم (پیکان سفید رنگ) دیده می‌شود. در تصویر سمت چپ نیز در مقطع کروئال CBCT سپتای مستقیم (پیکان آبی رنگ) قابل مشاهده است.

جراحی بیمار تحت بی‌هوشی عمومی انجام پذیرفت و کل ضایعه به همراه کندیل سمت چپ به روش بلاک رزکشن خارج گردید (تصویر ۷).



تصویر ۷: بلاک رزکسیون یکطرفه فک پایین. خط برش استئوتومی در مزیا دندان مولر دوم قرار داشت. کندیل سالم پس از اتصال به پلیت بازسازی، مجدداً به داخل حفره گلوئید بازگردانده شد.

در بخش جراحی، تحت بی‌حسی موضعی، بیوپسی اینسیژنال از دیواره باکال تومور انجام گردید و دو قطعه بافت نرم به رنگ کرم، با قوام سفت و در مجموع به سایز  $3 \times 10 \times 10$  میلی‌متر، برداشته شد. در بررسی هیستوپاتولوژی نمونه، ضایعه غیرکپسولر بوده و سلول‌های ستاره‌ای، دوکی و بیضی شکل درون استرومای سست میگزوییدی حاوی مقادیر اندکی از فیبریل‌های کلاژن و عروق پراکنده در آن مشاهده می‌شد. ارتشاح سلول‌های آماسی مزمن در فضای اطراف عروق مشهود بود. با توجه به این که ضایعه سنترالی بوده، در حاشیه آن مقاطعی از ترابکول‌های استخوانی طبیعی وجود داشت که تا حدودی ضایعه به درون آن نفوذ کرده بود. در برخی قسمت‌ها مقاطع کوچکی از شکل‌گیری استخوان‌های جدید یا راکتیو قابل رؤیت بود. در نتیجه با توجه به موارد فوق، در گزارش پاتولوژیست، میگزوم ادنتوژنیک تشخیص داده شد (تصویر ۶).



تصویر ۸: مقطع میکروسکوپی از تومور پس از جراحی کامل ضایعه که در آن میزان فیبریل‌های کلاژن از بافت میگزوییدی بسیار بیشتر بوده و تشخیص میگزوفیبروم تأیید می‌شود. (رنگ آمیزی H&E هماتوکسیلین و اتوزین و بزرگنمایی  $\times 400$ )

#### بحث

با جستجوی کلید واژگان Odontogenic myxofibroma یا "Odontogenic fibromyxoma" در پایگاه اطلاعاتی PubMed مشخص می‌شود که از سال ۱۹۵۰ تاکنون فقط ۲۴ مورد از آن در مقالات انگلیسی زبان گزارش شده است. که حاکی از شیوع بسیار پایین میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوژنیک است.<sup>(۱)</sup>

اصطلاح میگزوم برای اولین بار توسط Virchow در سال ۱۸۶۳ استفاده شد<sup>(۲ و ۳ و ۷)</sup> و اولین میگزوم ادنتوژنیک ماگزیلاری را Goldman و Thoma در سال ۱۹۴۷ گزارش کردند. آنان اعتقاد داشتند که میگزوم ادنتوژنیک از بافت ادنتوژنیک اکتومزانسیم منشأ

کندیل مندیبل با حفظ مارژین استخوانی، از قطعه استئوتومی شده خارج و به انتهای صفحه بازسازی (Reconstruction plate) منتقل گردید. سپس از ناحیه کرست ایلپاک قدیمی استخوان Cortico-Cancellous به فرم بلوک استخوانی برداشته و جهت تداوم استخوان مندیبل، بین قطعه کندیلی و استخوان مندیبل باقی مانده قرار داده شد. دو انتهای قطع شده عصب آلوئولر تحتانی مجدداً آناستوموز گردید. بافت خارج شده جهت تأیید هیستوپاتولوژی و بررسی حدود انتشار تومور به بخش آسیب شناسی بیمارستان ارسال گردید. نمونه خارج شده به ابعاد  $8 \times 4 \times 0.5$  سانتی‌متر بود که به جز حاشیه فوقانی تومور که قوام نرمی داشت، سایر نواحی از قوام سختی برخوردار بود. بررسی میکروسکوپی مارژین استخوانی نمونه، حاکی از عدم درگیری آن توسط تومور بود. خصوصیات هیستوپاتولوژیک سایر نواحی تومور مشابه نمای بیوپسی اولیه بود. با برداشت نمونه اخیر بافت کافی جهت بررسی هیستوپاتولوژی در اختیار پاتولوژیست قرار گرفت و به دلیل وجود دستجات فراوان فیبریل‌های کلاژن در استرومای میگزوییدی نسبت به نمونه قبلی، نمای ترکیبی میگزوفیبروم تشخیص داده شد (تصویر ۸) بیمار ما تا ۱۶ ماه پس از جراحی هیچ شواهدی از عود را نشان نداد.

در سر و گردن، استخوان فک پایین (با شیوع بین ۶۶/۴-۴۸ درصد) است.<sup>(۷)</sup> در ماگزیلا بین ۵۲-۳۳/۴ درصد گزارش شده است.<sup>(۱۸)</sup> شایع ترین محل درگیری در فکین، در نواحی مولر-پره مولر گزارش شده است (در فک پایین، ۶۵ درصد موارد و در فک بالا ۷۳/۸-۹۷ درصد موارد)<sup>(۱۲، ۱۶، ۱۸)</sup> میگزوفیروم ادنتوزنیک معمولاً به صورت یک طرفه است و گاهی کاملاً یک طرف ماگزیلا یا کل راموس و کندیل یک طرف مندیبل را گرفتار می نماید ولی هیچگاه از خط وسط عبور نمی کند.<sup>(۹)</sup> نشانه های بیماری علاوه بر تورم و آسیمتری می تواند شامل احساس سنگینی در کام و گونه باشد.<sup>(۱۲)</sup>

سلول های ستاره ای، دوکی و بیضی شکل درون استرومای سست میگزویدی حاوی مقادیر اندکی از فیبریل های کلاژن و عروق پراکنده مشاهده می شود. در برخی قسمت ها مقاطع کوچکی از شکل گیری استخوان های جدید یا رآکتیو قابل رؤیت می باشد (رنگ آمیزی H&E هماتوکسیلین و اتوزین و بزرگنمایی  $\times 400$ ) در موارد شدید ولی نادر، درگیری باندل های عروقی-عصبی کانال عصب فک پایین، سینوس ماگزیلا، حفره بینی و اربیت به ترتیب با علائم و نشانه هایی مانند پاراستزی یک طرفه فک پایین، گرفتگی بینی و اگزوفتالمی می تواند دیده شود.<sup>(۱۲، ۱۶)</sup> علامت کلینیکی دیگر مرتبط با تورم فکین شامل لقی، جابه جایی و مالاکلوژن دندان ها می باشد.<sup>(۱۲، ۱۶، ۱۸)</sup> این ضایعه در دو صورت می تواند با زخم دهانی بروز نماید، یکی در صورت تداخل با اکلوزن و دیگری در صورت پرفوراسیون کورتکس استخوانی و تهاجم به بافت نرم.<sup>(۸، ۱۲)</sup> در گزارش حاضر، بیمار ما در دهه دوم عمر قرار داشت و تومور در محل شایع آن یعنی در ناحیه خلف فک پایین، به صورت یک طرفه رخ داد. بیمار ما علائم نورولوژیکی مثل پاراستزی را گزارش

می گیرد.<sup>(۱۰)</sup> یک سال بعد از آن، Stout معیارهای بافت شناسی میگزوم را به عنوان یک نئوپلاسم واقعی که متاستاز نمی دهد و سایر اجزای مزانشیمال، مانند کندروبلاست، لیپوبلاست و رابدومیوبلاست در آن وجود ندارد را مجدداً شرح داد.<sup>(۷، ۱۰، ۱۲)</sup> در سال ۱۹۹۲، WHO آن را در طبقه بندی تومورهای ادنتوزنیک قرار داد و طبق تعریف این سازمان، میگزوم ادنتوزنیک یک تومور داخل استخوانی مزانشیمال خوش خیم است که از بافت اکتومزانسیم منشأ می گیرد و می تواند همراه یا بدون همراهی اپیتلیوم ادنتوزنیک باشد.<sup>(۷، ۸، ۱۲، ۱۶)</sup> دلایلی که مطرح کننده منشأ ادنتوزنیک این تومور است عبارتند از این که ۱- به ندرت در سایر استخوان ها رخ می دهد، از نظر بافت شناسی، شباهت زیادی به بافت اکتومزانسیمال دندان دارد، ارتباط قوی ای بین آن و دندان نهفته یا غایب (Missed) وجود دارد، منحصرأ در نواحی از فک رخ می دهد که در بردارنده دندان ها (Tooth bearing area) است و گاهی اوقات جزایر پراکنده ای از بافت اپیتلیوم ادنتوزنیک درون استرومای آن دیده می شود.<sup>(۸-۱۰، ۱۷، ۱۸)</sup>

میگزوم ادنتوزنیک می تواند از یک بافت میگزوماتوز کامل تشکیل شده باشد و یا اینکه ترکیبی از بافت میگزوماتوز و بافت فیبروزه باشد که در این حالت اگر نمای میگزوماتوز غالب باشد، فیبرومیگزوم و اگر نمای فیروز در بافت آن غالب گردد، نام میگزوفیروم به آن اطلاق می گردد.<sup>(۱۲)</sup> البته هنوز مشخص نیست که آیا میگزوفیروم از دژنرسانس میگزوماتوز یک ادنتوزنیک فیبروما ایجاد شده است یا ناشی از تولید بیش از حد الیاف کلاژن در یک میگزوم ادنتوزنیک.<sup>(۲)</sup>

در مقالات مختلف، روی تمایل به جنس مذکر یا مؤنث، توافق وجود ندارد و برخی میزان شیوع آن در هر دو جنس را مساوی می دانند.<sup>(۸، ۱۱)</sup> شایع ترین محل درگیری



شایع‌ترین الگوی داخلی آن نمای رادیولوسنت چندحفره‌ای (Multilocular) می‌باشد.<sup>(۲۰و۴)</sup> استخوان باقیمانده داخل ضایعه به سپتاهایی با اشکال انحنادار، مستقیم، خشن و یا ظریف می‌تواند Remodel شود.<sup>(۲۰)</sup> در اکثر موارد، وجود این سپتاها در رادیوگرافی Conventional به تومور یک نمای چندحفره‌ای می‌دهد.<sup>(۱۳و۲۰)</sup> ولی در بررسی‌های دقیق‌تر ضایعه با CT نشان داده است که در بیشتر این ضایعات، حفرات مجزای جداگانه حقیقی وجود ندارد و در نتیجه تک حفره‌ای با سپتاهای کاذب می‌باشند.<sup>(۱۳)</sup>

در الگوی نوع اول اگر ضایعه در ارتباط با یک دندان نهفته یا نرویده باشد، از کیست دتی‌ژروس غیرقابل افتراق است، زیرا الگوی داخلی کیست دتی‌ژروس نیز بدون سپتا می‌باشد. نکته مهمی که به افتراق این دو کمک می‌کند، اتصال کیست دتی‌ژروس به محل تماس Cemento-Enamel junction (CEJ) است که در میگزوم ادنتوژنیک توقع آن نمی‌رود.<sup>(۲۰)</sup> تفاوت دیگر میگزوم/میگزوفیروم ادنتوژنیک با کیست دتی‌ژروس، الگوی نوع دوم این تومور است<sup>(۲۰)</sup>، که در بیمار ما وجود الگوی نوع دوم، عدم وجود اتصال بین مارژین ضایعه و CEJ دندان نرویده، وجود سپتاهای با زاویه مستقیم و وجود فضای فولیکول دندان نرویده و جدای از ضایعه در نمای CBCT، سبب رد تشخیص کیست دتی‌ژروس گردید.

بین خصوصیات مارژین ضایعه و الگوی داخلی میگزوم/میگزوفیروم ادنتوژنیک و یا بین سن بیمار و اندازه آن ارتباطی دیده نشده است<sup>(۹و۱۲)</sup>، ولی اندازه ضایعه با حفره حفره بودن (Loculation) آن رابطه مستقیمی دارد، به طوری که در یک مطالعه عنوان شده است که اگر در نمای رادیوگرافی Conventional، رادیولوسنسی کوچکتر از ۴ سانتی‌متر باشد، تک حفره‌ای و اگر بزرگتر از ۴

نمی‌کرد و تنها علامت بیماری آسیمتری فک پایین بود. سرعت رشد تومور معمولاً آهسته است<sup>(۸و۱۶)</sup> ولی مواردی از رشد سریع را نیز گزارش کرده‌اند.<sup>(۹)</sup> انواع ماگزیلاری رشد سریع‌تری نسبت به انواع مندیبولار دارند<sup>(۱۰)</sup> و در صورت بروز در ماگزیلا، معمولاً سینوس ماگزیلا نیز درگیر شده و در این حالت کل حفره سینوس را اشغال می‌نماید.<sup>(۸و۱۹)</sup>

از نظر بالینی مانند آنچه که در بیمار ما مشاهده شد، تورم با قوام استخوانی یک طرفه، منفرد، بدون علامت، با رشد پیشرونده و آهسته با سیر چندماهه به همراه لقی دندان مجاور، می‌تواند ماهیت‌های مختلفی داشته باشد. کیست‌ها و تومورهای خوش‌خیم فکی که معمولاً رشد بدون علامتی دارند، یکی از شایع‌ترین این علل هستند.<sup>(۱۱و۱۵)</sup>

این تومور طیف وسیعی از نماهای رادیوگرافیک را به نمایش می‌گذارد و هریک از این نماها به نوبه خود تفاسیر متفاوتی دارند. مرز بین تومور با بافت‌های نرمال اطراف، یک ناحیه بحرانی بوده و رفتار بیولوژیک تومور را مشخص می‌نماید. مرز این تومور در رادیوگرافی‌های معمول غالباً مشخص (Well-Defined) و کورتیکه (Corticated) است. انواع ماگزیلاری آن، حدود نامشخص‌تری نسبت به انواع مندیبولار دارند.<sup>(۹و۱۳و۲۰)</sup> به طور کلی حدود تومور در تکنیک CT نسبت به رادیوگرافی Conventional مشخص‌تر است. البته حتی با وجود داشتن مرز مشخص، سلول‌های تومور فراتر از حدود رادیوگرافیک آن در مغز استخوان پیشروی می‌کنند.<sup>(۱۳)</sup> در کلیشه پانورامیک بیمار مورد نظر، ضایعه رادیولوسنت، حدود مشخص کورتیکال داشت و در بررسی CBCT ضایعه، در هیچ ناحیه‌ای پرفوراسیون کورتکس دیده نشد.

مواردی که پرفوراسیون رخ می‌دهد (بیشتر در انواع ماگزیلری)، مرز ضایعه با بافت‌های نرم اطراف مشخص و صاف باقی می‌ماند و به نظر می‌رسد که از پریوست استخوان فراتر نمی‌رود.<sup>(۱۳)</sup>

میگزوفیروم ادنتوزنیک مشابه اکثر تومورهای ادنتوزنیک دیگر سبب جابه‌جایی کانال عصب آلوئولار تحتانی به سمت پایین یعنی لبه استخوان مندیبل (مشابه بیمار ما) یا به سمت باکال کورتکس آن می‌شود و این الگوی جابه‌جایی را به قرارگیری جوانه دندانی در حال تکامل (به عنوان منشأ تومور) در سمت لینگوال کانال عصب آلوئولار تحتانی نسبت می‌دهند و از این رو در هنگام بیوپسی از ضایعه بایستی از آسیب به کانال عصب آلوئولار تحتانی احتراز نمود.<sup>(۲۲)</sup>

در تشخیص افتراقی انواع چند حفره‌ای میگزوم/میگزوفیروم ادنتوزنیک، از نظر کلینیکی و رادیوگرافیک، می‌توانیم طیف وسیعی از کیست‌ها و تومورهای خوش‌خیم را مد نظر قرار دهیم. این ضایعات شامل: آملوبلاستوما، کراتوسیستیک ادنتوزنیک تومور، همانژیومای داخل استخوانی، Aneurismal Bone Cyst، Central giant cell granuloma، چرویسیم و غیره می‌باشد.<sup>(۸،۱۲)</sup> اخیراً کاربرد MRI در افتراق بین میگزوم ادنتوزنیک و برخی ضایعات ادنتوزنیک دیگر ثابت شده است. برای مثال Asaumi و همکارانش<sup>(۳۳)</sup> توانستند کاربرد تصویربرداری MRI در افتراق میگزوم ادنتوزنیک از آملوبلاستوما را ثابت نمایند. نمای این تومور به دلیل قوام ژله‌ای که دارد، در تصاویر T2 weighted image (T2WI) به خوبی از بافت‌های نرم اطراف متمایز می‌شود.<sup>(۴)</sup> احتمالاً یافته‌های MRI در افتراق میگزوم/میگزوفیروم ادنتوزنیک از فولیکول دندانی مؤثر خواهد بود، علی‌رغم اینکه در بیمار ما این مورد، مانند مطالعات پیشین، بررسی نشد.

سانتی‌متر باشد، معمولاً چند حفره‌ای خواهد بود.<sup>(۱۸)</sup> البته میگزوم/میگزوفیروم ادنتوزنیک همیشه از این قانون پیروی نمی‌کند، به طوری که در بررسی Martinez-Mata و همکارانش<sup>(۶)</sup> مشخص شد که ۲۶ درصد (۶ مورد میگزوم ادنتوزنیک) از رادیولوسنسی‌های با اندازه بزرگ‌تر از ۴ سانتی‌متر، تک حفره‌ای بودند. همچنین در بررسی Noffke و همکارانش<sup>(۲۱)</sup> هم یک مورد میگزوم ادنتوزنیک با نمای مشابه کیست فولیکولار (یا کیست دتی‌ژروس) به شکل یک رادیولوسنسی تک حفره‌ای پری‌کروئال مشاهده شد. به هر حال در بیمار ما با وجود اندازه بزرگ، ضایعه در نمای پانورامیک به صورت یک رادیولوسنسی متقارن که تاج دندان عقل نهفته را در بر می‌گرفت، دیده می‌شد و در نظر اول نمای یک کیست دنتی‌ژروس را تقلید می‌نمود.

به عنوان یک قانون، میگزوم/میگزوفیروم ادنتوزنیک بیشتر باعث جابه‌جایی دندان‌ها می‌شود تا تحلیل ریشه آنها و معمولاً هم بین ریشه دندان‌ها حالت کنگره‌ای (Scalloped) ایجاد می‌کند.<sup>(۱۰،۱۲)</sup> در دو مطالعه مشخص شد که حدود ۸۰-۶۵ درصد موارد همراه با جابه‌جایی دندان و ۴۷-۱۰ درصد موارد همراه با تحلیل ریشه بوده است.<sup>(۱۲،۱۳)</sup> به طور مشابه در بیمار ما نیز ضایعه سبب جابه‌جایی مزبالی ریشه‌های دندان مولر دوم شده بود. این تومور برخلاف سایر تومورهای خوش‌خیم ادنتوزنیک بیشتر تمایل به رشد در طول استخوان (Extension) دارد تا تمایل به متورم کردن (Expansion) آن و زمانی تورم استخوانی ایجاد می‌کند که به اندازه بزرگی رسیده باشد<sup>(۲۰)</sup>، که در بیمار ما نیز گسترش ضایعه در استخوان نسبت به میزان اتساع کورتکس مندیبل، قابل توجه بود.

در اکثر موارد (به خصوص در انواع مندیبولار آن) تورم استخوان سبب پرفوراسیون کورتکس نمی‌شود (همانطوری که در CBCT بیمار ما دیده نشد) و در

بزرگ می‌شود. طوری که می‌تواند سبب دفورمیتی شدید استخوان‌های سر و صورت شود.<sup>(۲۰)</sup>

در بیمار ما سمت چپ مندیبل از کندیل تا خلف دندان مولر اول به روش بلاک رزکشن خارج شد و تا حدود ۱۶ ماه، عود ضایعه مشاهده نشد (تصویر ۶).

### نتیجه‌گیری

این گزارش مورد اهمیت قرار دادن میگزوم/فیبرومیگزوم ادنتوژنیک در تشخیص افتراقی ضایعات رادیولوسنت فک پایین را مشخص می‌کند. مواردی که در تشخیص افتراقی بررسی‌های بالینی و رادیوگرافیک در مورد میگزوم مطرح می‌شود، قطعی نبوده و جهت رسیدن به تشخیص نهایی، بررسی هیستوپاتولوژی لازم است. البته همکاری تنگاتنگ با پاتولوژیست مجرب ضروری است، زیرا تشخیص وی می‌تواند منجر به جراحی و یا درمان‌های محافظه‌کارانه‌تری شود. قبل از جراحی کامل ضایعه، بررسی‌های رادیولوژیک مانند رادیوگرافی‌های ساده و یا سه بعدی جهت تعیین حدود تومور و در مواردی مانند بیمار گزارش شده، افتراق ضایعه از فضای فولیکولر دندان‌های مجاور ضروری می‌باشد. به دلیل احتمال عود بالای میگزوم/فیبرومیگزوم ادنتوژنیک، بایستی بیمار تا سال‌ها پس از جراحی به صورت منظم پیگیری (Follow-up) گردد.

تا آنجایی که اطلاع داریم، تاکنون در مقالات و منابع مختلف به مجزا بودن فضای فولیکولر دندان از فضای تومورال میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوژنیک در رادیوگرافی اشاره نشده است. در بیمار ما در تصویربرداری CBCT، این دو رادیولوسنسی با هم ارتباطی نداشتند، به طوری که یک خط رادیوپاک مشخص و Corticated آنها را از هم جدا می‌نمود (تصویر ۴) متأسفانه ناحیه در بر دارنده دندان نرویدده مولر سوم و فولیکول آن، در دسترس نبود که بتوان با برش مقاطع آن ارتباط بافت شناسی این دو را بهتر مشخص نمود.

برای انجام دقیق آنالیز عود میگزوم/میگزوفیبروم ادنتوژنیک، گزارشات Follow-up کمی از تومور وجود دارد.<sup>(۱۰)</sup> این تومور به طور کلی میزان عود بالایی دارد (بین ۱۰-۴۳ درصد و با میانگین ۲۵ درصد)<sup>(۱۱،۱۶)</sup> اولین و عمده‌ترین علت عود آن مربوط به جراحی ناکافی تومور است تا رفتار بیولوژیک مهاجم آن.<sup>(۳،۷)</sup> سایر دلایل عود بالا عبارتند از: نداشتن کپسول، داشتن ماهیت ژلاتینی (که باعث رسوخ آسان تومور به داخل مغز استخوان و محو شدن مارژین تومور حین جراحی می‌شود)<sup>(۲۰، ۲۱، ۱۰-۸)</sup> و همچنین عدم مراجعه منظم بیماران جهت جلسات منظم پیگیری می‌باشد.<sup>(۸)</sup> در صورت عدم درمان، تومور بسیار

### منابع

1. Meleti M, Giovannacci I, Corradi D, Manfredi M, Merigo E, Bonanini M, et al. Odontogenic myxofibroma: A concise review of the literature with emphasis on the surgical approach. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2015; 20(1): 1-6.
2. Zayet MK, Eiid SB. Multiple fibromyxomas of the jaws: A case report. *Imaging Sci Dent* 2014; 44(3): 237-41.
3. Kawase-Koga Y, Saijo H, Hoshi K, Takato T, Mori Y. Surgical management of odontogenic myxoma: A case report and review of the literature. *BMC Res Notes* 2014; 7: 214.
4. Kheir E, Stephen L, Nortje C, van Rensburg LJ, Titinchi F. The imaging characteristics of odontogenic myxoma and a comparison of three different imaging modalities. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013; 116(4): 492-502.

5. Saghravani N, Jafarzadeh H, Bashardoost N, Pahlavan N, Shirinbak I. Odontogenic tumors in an Iranian population: A 30-year evaluation. *J Oral Sci* 2010; 52(3): 391-6.
6. Martinez-Mata G, Mosqueda-Taylor A, Carlos-Bregni R, de Almeida OP, Contreras-Vidaurre E, Vargas PA, et al. Odontogenic myxoma: Clinico-pathological, immunohistochemical and ultrastructural findings of a multicentric series. *Oral Oncol* 2008; 44(6): 601-7.
7. Etemad-Moghadam S, Chookhachizadeh S, Baghaei F, Alaeddini M. Odontogenic Myxoma: A study based on biopsy material over a 40-year period. *J Contemp Dent Pract* 2014 ; 15(2): 137-41.
8. Carvalho de Melo AU, de Farias Martorelli SB, Cavalcanti PH, Gueiros LA, Martorelli Fde O. Maxillary odontogenic myxoma involving the maxillary sinus: Case report. *Braz J Otorhinolaryngol* 2008; 74(3): 472-5.
9. Chrcanovic BR, do Amaral MB, Marigo Hde A, Freire-Maia B. An expanded odontogenic myxoma in maxilla. *Stomatologija* 2010; 12(4): 122-8.
10. Manjunath S, Gupta A, Swetha P, Moon N, Singh S, Singh A. Report of a rare case of an odontogenic myxoma of the maxilla and review of literature. *Ann Med Health Sci Res* 2014; 4(1): 45-8.
11. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bauquot Je. *Oral and Maxillofacial pathology*. 3<sup>rd</sup> ed. Philadelphia: W.B. Saunders Co; 2009. P. 729-732.
12. Limdiwala P, Shah J. Odontogenic myxoma of maxilla: A review discussion with two case reports. *Contemp Clin Dent* 2015; 6(1): 131.
13. Koseki T, Kobayashi K, Hashimoto K, Arijji Y, Tsuchimochi M, Toyama M, et al. Computed tomography of odontogenic myxoma. *Dentomaxillofac Radiol* 2003; 32(3): 160-5.
14. Kim J, Ellis GL. Dental follicular tissue: Misinterpretation as odontogenic tumors. *J Oral Maxillofac Surg* 1993; 51(7): 762-7.
15. Glick M. *Burket's Oral Medicine*. 12<sup>th</sup> ed. St. Louis: Mosby Co; 2014. P. 170.
16. Liu Y, Han B, Yu T, Li L. A large odontogenic myxoma of the bilateral maxillae: A case report. *Oncol Lett* 2014; 8(3): 1328-32.
17. Gomes CC, Diniz MG, Duarte AP, Bernardes VF, Gomez RS. Molecular review of odontogenic myxoma. *Oral Oncol* 2011; 47(5): 325-8.
18. Kiresur MA, Hemavathy S. An aggressive odontogenic myxoma of the maxilla. *Indian J Dent Res* 2014; 5(4): 214.
19. Zhang J, Wang H, He X, Niu Y, Li X. Radiographic examination of 41 cases of odontogenic myxomas on the basis of conventional radiographs. *Dentomaxillofac Radiol* 2007; 36(3): 160-7.
20. White SC, Pharoah MJ. *Oral Radiology: Principles and Interpretation*. 7<sup>th</sup> ed. St. Louis: Mosby Co; 2014. P. 378-80.
21. Noffke CE, Raubenheimer EJ, Chabikuli NJ, Bouckaert MM. Odontogenic myxoma: Review of the literature and report of 30 cases from South Africa. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 104(1): 101-9.
22. Kolokythas A, Al-Ghamian H, Miloro M. Does a difference exist in inferior alveolar canal displacement caused by commonly encountered pathologic entities? An observational study. *J Oral Maxillofac Surg* 2011; 69(7): 1944-51.
23. Asaumi J, Matsuzaki H, Hisatomi M, Konouchi H, Shigehara H, Kishi K. Application of dynamic MRI to differentiating odontogenic myxomas from ameloblastomas. *Eur J Radiol* 2002; 43(1): 37-41.