

Nedoumice u dijagnostici i liječenju odontogenih tumora

Dilemmas in the Diagnosis and Treatment of Odontogenic Tumors

Goran Knežević
Jakša Grgurević
Spomenka Manojlović*
Fabijan Knežević*

Klinika za kirurgiju lica,
čeljusti i usta Medicinskog
i Stomatološkog fakulteta
u Zagrebu

*Zavod za opću patologiju
i patološku anatomiju
Medicinskog fakulteta
u Zagrebu

Sažetak

Na temelju podjele odontogenih tumora koju je Svjetska zdravstvena organizacija prihvatile godine 1971., a zatim dopunila i izmjenila 1992., autori su procijenili stanje dijagnostike i liječenja te vrste tumora u nas, navodeći domaću stručnoznanstvenu literaturu, koja se bavila tom problematikom postupno prikazujući nove slučajeve dijagnosticiranih odontogenih tumora.

U kontekstu promjena koje su se dogodile u zadnjoj podjeli tumora iz 1992. i podataka iz suvremene svjetske literature, prikazuje se nekoliko tipičnih i atipičnih patoloških promjena iz skupine odontogenih tumora koji su zadnjih godina u nas dijagnosticirani. U zaključku se zbog složenosti problematike upozorava na potrebu uvođenja kliničkog patologa koji bi se bavio isključivo područjem oralne patologije.

Ključne riječi: *odontogeni tumori, podjele, dijagnostika, dileme*

Acta Stomatol. Croat.
1995; 29: 63—69

STRUČNI RAD

Primljeno: 15. ožujka 1995.
Received: March 15, 1995.

Svjetska zdravstvena organizacija na preporuku Pindberga i Kamera prihvatile je godine 1971. podjelu odontogenih tumora, cista i drugih patoloških promjena čeljusti (1). Odontogeni tumori podijeljeni su na dobroćudne i zloćudne, a u skupini dobroćudnih navedeno je četrnaest različitih tvorevinu, različite histogeneze, histološke i kliničke slike i različita ponašanja.

Od tada do danas autori su se u svojim klasifikacijama odontogenih tumora uglavnom pozivali na navedenu podjelu, a prije toga na podjele koje su prethodile onoj iz 1971., spominjući ponekad neke starije nazive tumora, obrazlažući svoje razloge za posebno isticanje nekih tumora ili uvodeći nove nazive koji bi trebali odrediti nove patološke entitete (2, 3, 4, 5).

Prateći godinama pojavu odontogenih tumora u našoj kazuistici, utvrdili smo da jedan broj odontogenih tumora u nas nije dijagnosticiran. To je bilo razlogom da smo godine 1977. ispitali učestalost pojave odontogenih tumora u pretходnom tridesetogodišnjem razdoblju (6, 7). Pоказalo se da smo do tada dijagnosticirali pet različitih dobroćudnih odontogenih tumora.

Raspravlјajući tada, a i kasnije, o toj našoj specifičnosti zaključili smo da su tri razloga postojećeg stanja. Prvi je razlog da nismo bili u stanju dijagnosticirati najveći broj tada poznatih odontogenih tumora. Drugi, da nismo patohistološki raščlanjivali klinički i rentgenološki naoko jasne slučajeve patoloških promjena čeljusti, poput folikularnih cista, periapikalnih

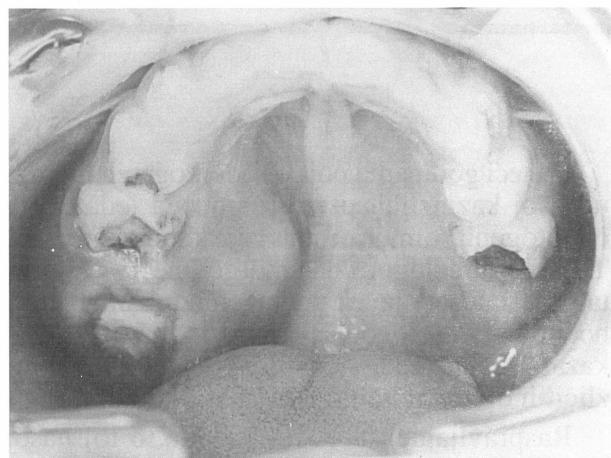
upalnih promjena ili drugih prozračnosti čeljusti.

Treći je razlog, a taj je posljedica prvoga, da smo jedan broj odontogenih tumora krivo dijagnosticirali i najčešće ih svrstavali među dva tipična predstavnika te vrste tumora, odontom i ameloblastom.

U zadnjih deset godina stanje se promjenilo, što pokazuju novi primjeri dijagnosticiranih odontogenih tumora. Primjer ameloblastičnog fibroma, koji smo opisali godine 1990. (8), a koji je nađen kod mladića u 21. godini života, potvrda je boljeg poznavanja navedene patologije, a demandirao je autore koji tvrde da je ameloblastični fibrom samo jedna faza u razvoju odontoma, i to preko faze ameloblastičnog fibro-odontoma (9, 10, 11). Od tog opisa do danas pojavili su se novi slučajevi do tada nepoznatih tumora, ali i takvi koji su otvarali dileme i što se tiče procjene njihove prave naravi i što se tiče liječenja.

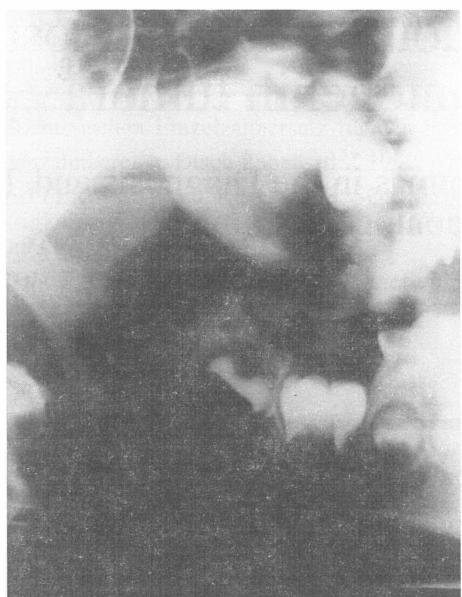
Prikaz slučajeva

1. Djevojčica u dobi od četiri godine dovedena je zbog tumorske tvorbe koja je deformirala lice i alveolarni greben desne strane gornje čeljusti. Razmjerno kratak razvoj bolesti i rana dječja dob bili su razlogom sumnje na agresivni neoplastični proces. Međutim, niti rentgen-



Slika 1. Tumor desne strane gornje čeljusti u 4-godišnje djevojčice. Vidi se ulceracija gingive na hrptu alveolarnog grebena na mjestu gdje je uzeto tkivo za histološku pretragu.

Figure 1. Tumor of the maxilla in a 4-year-old girl. Gingival ulceration seen on the alveolar ridge, at the site from which the tissue for histologic examination was obtained.



Slika 2. Rentgenogram pokazuje oštro ograničenu sjenu intenziteta kalcificiranoga zubnog tkiva u tuberu gornje čeljusti, koja je s mezijalne strane nepravilno prosvijetljena.

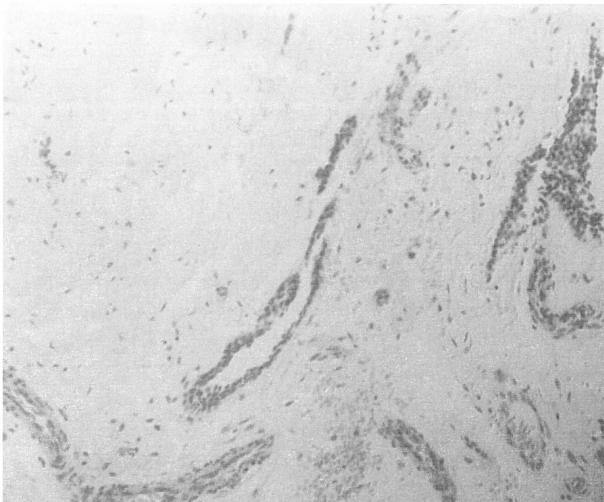
Figure 2. X-ray showing a sharply delineated shadow of calcified dental tissue intensity in the maxillary tuber, which is irregularly illuminated from the mesial side.

ski nalaz niti nalaz kompjutorizirane tomografije čeljusti nisu govorili tome u prilog, jer su pokazivali razmjerno oštro ograničenu sjenu u desnom tuberu, intenziteta kalcificiranoga zubnog tkiva (slike 1 i 2). Biopsijski uzorak uzet je s hrpta alveolarnog grebena, a dijagnoza je bila ameloblastični fibro-odontom.

Kirurški je odstranjena očahurena, tvrda tumorska tvorba, koja se najvećim dijelom sastoji od kalcificiranoga tkiva tvrdog poput slonovače, a manjim dijelom od mekog tkiva.

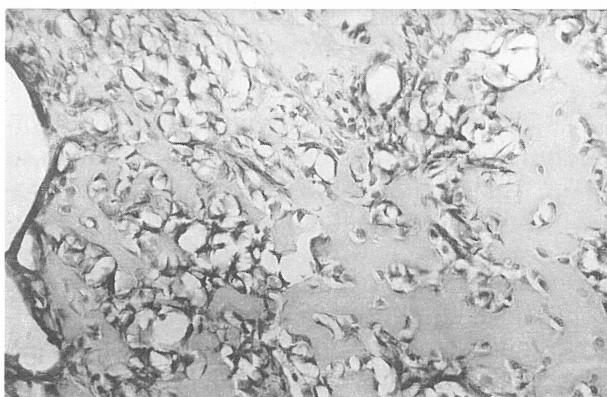
Histološki je nađena rahla miksomatozna stroma s rijetkim zvjezdolikim stanicama koja prelazi u bezstrukturnu hijalinu masu. Ispod vezivne čahure u celularnom vezivu nađeni su brojni tračci pravilnoga kubičnog odontogenog epitela (slike 3 i 4). U ovom slučaju radilo se dakle o pojavi zrelijie forme tumora u odnosu na ameloblastični fibrom, koja se pojavila kod malog djeteta, tj. u ranijoj fazi odontogeneze, pa je malo vjerojatno da je toj fazi prethodila faza ameloblastičnog fibroma.

2. Drugi je tumor slučajno dijagnosticiran u četrnaestogodišnjeg dječaka koji je u tijeku ortodontskog liječenja upućen na alveotomiju gor-



Slika 3. Tračci i nakupine odontogenog epitela u vezivnoj stromi sa zyjezdolikim stanicama

Figure 3. Traces and accumulations of odontogenic epithelium in connective stroma with star cells

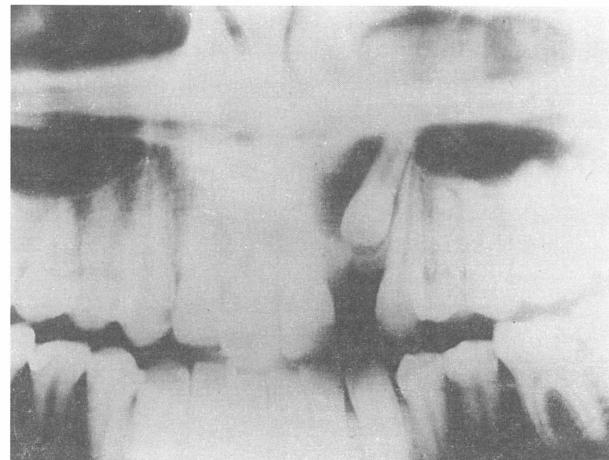


Slika 4. Dio istog tumora u kojem se vide i epitelnji i mezenhimalni elementi. Vezivna stroma prelazi u bezstrukturno kalcificirano tkivo slično dentinu. U drugim dijelovima nađena je i caklina. Dijagnoza: ameloblastični fibro-odontom.

Figure 4. A part of the same tumor containing both epithelial and mesenchymal elements. The connective stroma converting into structureless calcified dentin-like tissue. Enamel also found in other parts of the tumor. Diagnosis: Ameloblastic fibroodontoma.

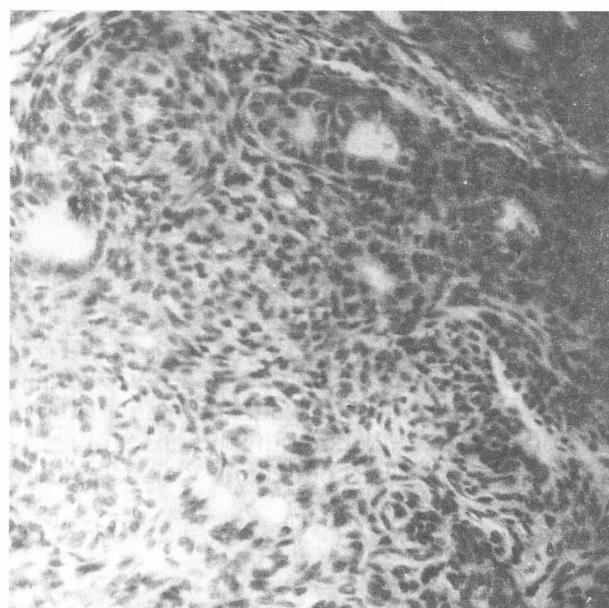
njeg lateralnog sjekutića. Perikoronarno tkivo, koje je rentgenološki djelovalo poput folikularne ciste, upućeno je na histološku raščlambu i ocijenjeno kao adenomatoidni odontogeni tumor (slika 5).

Tvorba je histološki bila građena od tračaka, slojeva i vrtloga epitelnih stanica koje mjestimice stvaraju prstenove poput kanalića žlezdanog tkiva (slike 6a, b, c).



Slika 5. Ortopantomogram drugoga opisanog slučaja. Vidljivi su sjena retiniranog očnjaka i perikoronarno prosvjetljenje poput folikularne ciste.

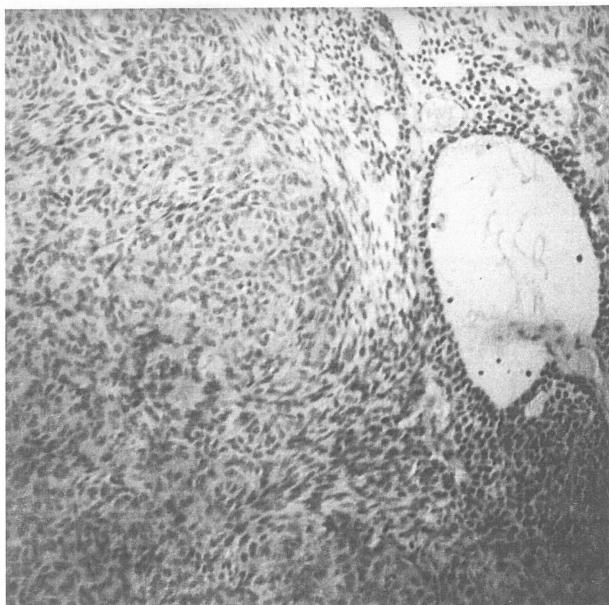
Figure 5. Orthopantomogram taken in another patient described. A shadow of the retained canine and perikoronal illumination resembling a follicular cyst.



Slika 6.a. Tumorsko tkivo sastoje se od tračaka, slojeva i vrtloga epitelnih odontogenih stanica, koje mjestimice stvaraju pseudokanalicike kao u žlezdanog tkiva. Dijagnoza: adenomatoidni odontogeni tumor.

Figure 6a. Tumor tissue consisting of traces, strata and whirls of epithelial odontogenic cells which sporadically form pseudocanaliculi, like in glandular tissue. Diagnosis: Adenomatoid odontogeni tumor.

Iako iz literature točno znamo da se adenomatoidni odontogeni tumor najčešće pojavljuje uz retinirane zube i izgleda poput folikularne ciste, te znamo kako patohistološki izgleda, bio



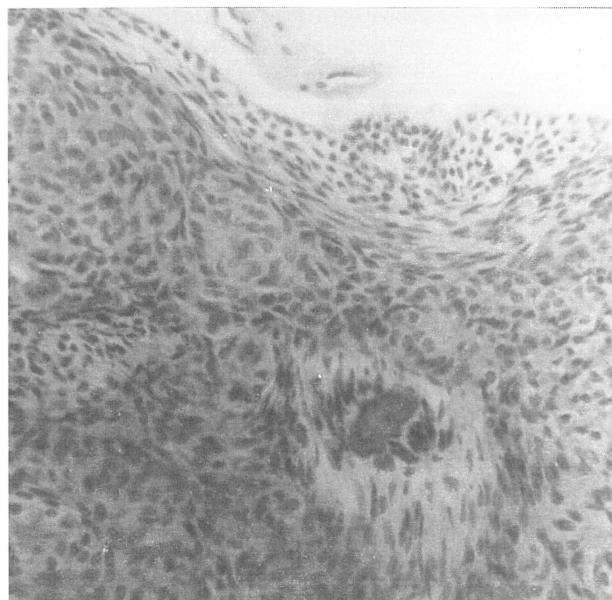
Slika 6b. Isti slučaj s većom pseudokanalikularnom promjenom u lumenu koje je PAS-pozitivni materijal
Figure 6b. The same patient with a more extensive pseudocanicular alteration in the lumen, a PAS-positive material.

je to prvi slučaj takvoga tumora u našoj kazuistici (12).

3. Na kraju prikazujemo četiri slučaja koštanih prosvjetljenja čeljusti, kod kojih je odontogeni etiologija bila vrlo vjerojatna. U dva slučaja nije se radilo o odontogenim tumorima već o brzoprotročnom hemangiomu i vrlo rijetkoj pojavi mukoepidermoidne odontogene ciste u mandibuli. U druga dva slučaja radilo se o atipičnim oblicima monocističnih ameloblastoma čeljusti, koji su klinički ocijenjeni kao ciste (slike 7, 8, 9a i 9b).

Rasprijava

Navedeni primjeri jasno pokazuju da se u nas stanje kliničke patologije u području odontogenih tumora postupno približilo svjetskim mjerilima. Ta nam činjenica ne dopušta da budemo zadovoljni postojećim stanjem iz više razloga. Prvi je razlog da još uvijek postoji nekoliko odontogenih tumora koje nismo dijagnosticirali — kalcificirajući odontogeni tumor, kalcificirajuća odontogena cista i odontoameloblastom. Sljedeći vrlo važan razlog leži u činjenici da su godine 1992. Kramer, Pindberg i Shear objavili novu klasifikaciju odontogenih tumora, koju je godinu dana prije najavio Hjorting-Hansen (13,

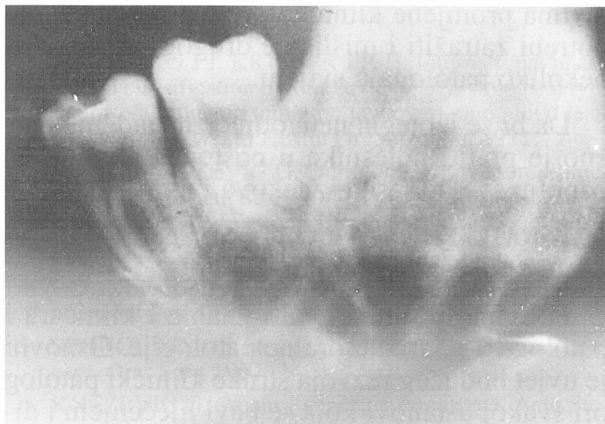


Slika 6c. Promjena u dijelu tumora koja odgovara stvaranju displastičnog dentina
Figure 6c. An alteration in a part of the tumor, indicating the formation of dysplastic dentin.

14). Ta klasifikacija ponovno spominje 14 različitih dobroćudnih odontogenih tumora, ali su iz nje ispalte neke tvorbe — dentinom i melanotični neuroektodermalni tumor dječje dobi, a pojavile su se nove tvorevine koje se sada smatraju zasebnim patološkim entitetima, npr. klarocelularni (svijetlih stanica) i skvamozni (pločastih stanica) odontogeni tumor. U prethodnim klasifikacijama takve se promjene nisu spominjale već smo ih nalazili opisane kao (15) inačice ameloblastoma ili karcinoma. Važno je留意 spomenuti da je riječ o tvorbama različita ponašanja, pa ih treba i različito liječiti, ali ih prethodno treba ispravno dijagnosticirati.

Nova razmišljanja Gardnera iz 1992. (16) također idu smjerom jednostavne podjele odontogenih tumora na epitelne, mezenhimalne i mješovite, a ne podjela koje su se temeljile na induktivnim promjenama zubnih tkiva. Isti autor također upozorava na tipične i atipične forme ameloblastoma, ameloblastičnog fibroma i odontoma i zalaže se da se pod tim nazivima mogu naći samo one tvorbe koje imaju jasnou i prepoznatljivu patohistološku sliku.

Kad svemu rečenom dodamo još mogućnosti promjene kliničkog tijeka bolesti nekih benignih odontogenih tumora u maligna nezadrži-



Slika 7. Policistično prosvjetljenje u angulusu mandibule. Intraoperacijsko jako krvarenje. Dijagnoza: hemangiom

Figure 7. Polycystic illumination in the mandibular angle. Massive intraoperative bleeding. Diagnosis: Hemangioma.



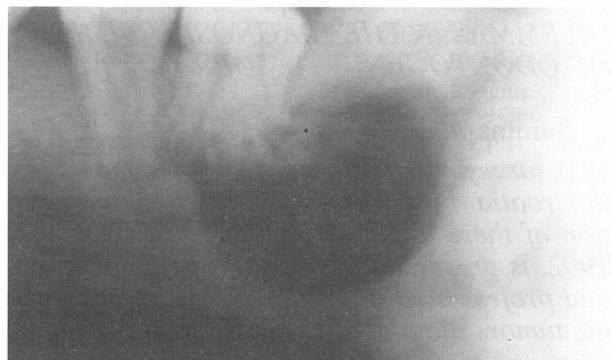
Slika 8. Nepravilno prosvjetljenje distalno od korijena umnjaka. Dijagnoza: mukoepidermoidna odontogenična cista s mogućnošću mukoepidermoidnog karcinoma

Figure 8. Irregular illumination distally from the wisdom tooth root. Diagnosis: Mucoepidermoid odontogenic cyst, possibly mucoepidermoid carcinoma.



Slika 9a. Primjer monocističnog ameloblastoma koji rentgenски izgleda poput folikularne ciste

Figure 9a. An example of monocystic ameloblastoma, on X-ray resembling a follicular cyst



Slika 9b. Primjer monocističnog ameloblastoma koji rentgenски izgleda poput radikularne ciste. Vidljiva je i radikularna invaginacija korijena umnjaka.

Figure 9b. An example of monocystic ameloblastoma, on X-ray resembling a radicular cyst. Radicular invagination of the wisdom tooth root also observed.

va bujanja, na što smo upozorili još 1974. opisujući odontogene miksome čeljusti (17) i nagašavajući da se nije radilo o promjeni naravi tumora već o krivoj kliničkoj i patohistološkoj procjeni tumora od početka liječenja, kad spomenemo i maligne inačice odontogenih tumora koji se u literaturi spominju danas kao i prije (18, 19), tada je jasno da nema razloga za zadovoljstvo postojećim stanjem, već ga je potrebno mijenjati prema mjerilima koja su priznata u svijetu.

Primjer mukoepidermoidne ciste čeljusti koju smo prikazali dokaz je da se i u području odon-

togenih cista stavovi mijenjaju ne samo što se tiče terminologije, već i uvođenja novih patoloških entiteta u podjelu od 1992. Takva se naine promjena nije spominjala u podjeli iz 1971., a od 1987. ona se nalazi u literaturi pod nazivima koji upućuju na odontogenu etiologiju i epitelne elemente koji stvaraju sluz (20, 21, 22).

Već sama činjenica da se i taj patološki supstrat u nas pojavio govori o prihvaćanju suvremenih svjetskih kriterija i poznavanju patologije. Navedena podjela iz 1992. takvu vrstu ciste naziva glandularnom odontogenom cistom ili si-jalo-odontogenom cistom.

Zaključak

Sve odontogene tumore potrebno je preoperativno dijagnosticirati biopsijom ili po procjeni operatera liječiti i dijagnosticirati eksciziskom biopsijom. Kriteriji dijagnostike moraju se temeljiti na suvremenim podjelama i kriterijima priznatih svjetskih patologa, što podrazumijeva redovito praćenje spoznaja i znanja o tom području oralne patologije.

Patohistološku provjeru tkiva potrebno je provesti u svim slučajevima promijenjenog tkiva u čeljusti, kao i u slučajevima klinički i rentgenološki prividno jasnih odontogenih ili drugih promjena. Provjeru tkiva treba ponoviti i više puta u svim nejasnim slučajevima ili sluča-

jevima promjene kliničkog tijeka bolesti, te po potrebi zatražiti i mišljenje drugog patologa ili nekoliko patologa u svijetu.

Da bi se izbjegla neugodna iznenađenja, nužno je pratiti bolesnika u postoperativnom razdoblju sve do jasnih znakova izlječenja.

Kirurški zahvat potrebno je prilagoditi dokazanom ponašanju tumora.

Potrebno je unaprijediti znanje i kliničara i patologa u području oralne patologije. Osnovni je uvjet budućeg razvoja struke klinički patolog pri svakoj ustanovi koja se bavi liječenjem i dijagnostikom bolesti usne šupljine, čeljusti i zuba.

DILEMMAS IN THE DIAGNOSIS AND TREATMENT OF ODONTOGENIC TUMORS

Summary

A survey of the diagnosis and treatment of odontogenic tumors in Croatia, based on the World Health Organization classification of these tumors from 1971, supplemented and modified in 1992, is presented, along with the respective Croatian scientific and professional literature reporting on new cases of odontogenic tumors diagnosed over a certain period of time.

Several typical and atypical pathologic changes from the group of odontogenic tumors diagnosed during the last few years are described in view of the latest 1992 modifications of tumor classification. The authors point to the complexity of the problem which obviously requires a clinical pathologist to be included in the team to exclusively work on oral pathology.

Key words: *odontogenic tumors, classification, diagnosis, dilemmas*

Adresa za korespondenciju:
Address for correspondence:

Prof. dr. sc. Goran Knežević
Zavod za oralnu kirurgiju,
Stomatološki fakultet
Sveučilišta u Zagrebu,
Gundulićeva 5, Zagreb,
Hrvatska

Literatura

1. PINDBERG J J, KRAMER I R H. International histological classification of tumours: No. 5. histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. Geneva, World Health Organization, 1971.
2. MIŠE I, KNEŽEVIC G. Odontomi s atipičnom kliničkom slikom. *Acta Stomatol Croat* 1971; 6:117-123.
3. GARDNER D G. The mixed odontogenic tumours. *Oral Surg* 1984; 58:166-168.
4. HOOKER S P. Ameloblastic odontoma: An analysis of twenty six cases. *Oral Surg* 1967; 24:375-376.
5. SPOUGE J D. Odontogenic tumours. An unitarian concept. *Oral Surg* 1967; 24:392-403.
6. KNEŽEVIC G. Pojam i značenje odontoma. *Acta Stomatol Croat* 1977; 11:84-90.
7. KNEŽEVIC G. Odontogeni tumori u teoriji i praksi. *Acta Stomatol Croat* 1977; 11:167-175.
8. KNEŽEVIC G, GRGUREVIĆ J, UGLEŠIĆ V, MA-NOJLOVIĆ S. Ameloblastički fibrom - prikaz slučaja i prilog raspravi o međusobnoj vezi mješovitih odontogenih tumora. *Acta Stomatol Croat* 1990; 24:45-53.
9. CAHN L R, BLUM T. Ameloblastic odontoma: case report critically analysed. *J Oral Surg* 1952; 10:169-170.
10. MCKINNEY A L. The development of a compound odontoma. *J Dent Child* 1984; 51:164-147.
11. EVERSOLE L R, TOMICH C E, CHERRICK H M. Histogenesis of odontogenic tumours. *Oral Surg* 1971; 32:569-581.
12. PHILIPSEN H P, REICHART P A, ZHANG K H, NI-KAI H, YU Q X. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991; 20:149-158.
13. KRAMER I R, PINDBORG J J, SHEAR M. The WHO histological typing of odontogenic tumours. A commentary on the second edition. *Cancer* 1992; 70:2988-2994.
14. HJØRTING-HANSEN E. Benign tumors of the jaws. *Current Opinion Dent* 1991; 1:296-304.
15. LUCAS R B. Pathology of tumours of the oral tissues, 3rd ed, Edinburgh, London, New York, Churchill Livingstone, 1976.
16. GARDNER D G. An orderly approach to the study of odontogenic tumours in animals. *J Comparative Patho* 1992; 107:427-438.
17. PILAR-SVOBODA B, KNEŽEVIC G. Miksomi čeljusti. *Chir Maxillofac Plast* 1974; 9:11-17.
18. HOWELL R M, BURKES E J. Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. *Oral Surg* 1977; 43:391-401.
19. MATEAR D W CREWE T C. Malignant ameloblastoma? A case report and review of literature outlining problems in diagnosis and treatment. *J Royal Naval Med Serv* 1991; 77:5-10.
20. PADAYACHEE A, VAN WYKE C W. Two cystic lesions with features of both the botryoid odontogenic cyst and the central mucoepidermoid tumour: sialo-odontogenic cyst? *J Oral Pathol* 1987; 16:499-504.
21. GARDNER D G, KESSLER H P, MORENCY R, SCHAFFNER D L. The glandular odontogenic cyst: an apparent entity. *J Oral Pathol* 1988; 17:359-366.
22. SADEGHI E M, WELDON L L, KWON P H, SAMPSON E. Mucoepidermoid odontogenic cyst. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1991; 20:142-143.