

AMELOBLASTIČKI FIBROM — PRIKAZ SLUČAJA I PRILOG RASPRAVI O MEĐUSOBNOJ VEZI MJEŠOVITIH ODONTOGENIH TUMORA

Knežević Goran, Grgurević Jakša, Uglešić Vedran,* Manojlović Spomenka*

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

Autori prikazuju slučaj ameloblastičkog fibroma gornje čeljusti u 21 godišnjem mladiću.

Dimenzije tumora govore za višegodišnji rast, a pojava u dobi kada je odontogeneza već završena, prilog je teoriji da se radi o zasebnom patološkom entitetu, a ne o fazi u razvoju odontoma. U kontekstu tih dviju teorija raspravlja se o međusobnoj vezi mješovitih odontogenih tumora.

Cljučne riječi: ameloblastički fibrom, odontogeni tumor

Prikazi odontogenih tumora u suvremenoj stručnoj domaćoj literaturi vrlo su rijetki i bili su na liniji rasprave o pojmovima odontogenih tumora i odontoma, ili osvrtni na tipične predstavnike odontom i ameloblastom (1, 2, 3, 4, 5), a tek ponekad su se odnosili na pojedine predstavnike te patologije koji se rjeđe pojavljuju (6).

Razumna procjena takvog stanja neće uzroka tražiti u tome da se određena patologija kod nas ne pojavljuje, već vjerojatnije da se ona ne dijagnosticira, što opet znači da je velik broj odontogenih tumora krivo dijagnosticiran, pa prema tome i neadekvatno liječen. Ameloblastički fibrom spada u takvu vrstu patoloških promjena, koja se u našoj kazuistici po prvi puta verificira, što ne znači i to da se po prvi puta pojavljuje. Ne ulazeći u razloge takvog stanja želimo prikazati slučaj, sa svim karakteristikama kliničkog, rendgenološkog i patohistološkog nalaza, s osnovnom namjerom da upozorimo na izrazitu raznovrsnost patologije odontogenih tumora, kako bi joj se u budućnosti posvetilo više pozornosti i tako izbjegle pogreške prošlosti.

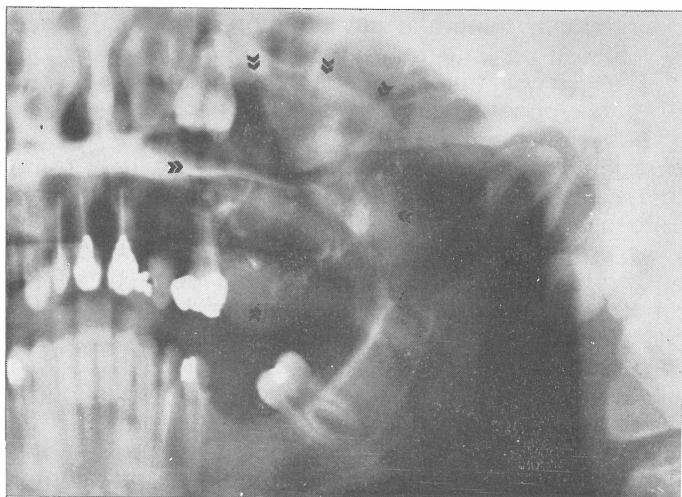
Ameloblastički fibrom je benigni, lokalno neinvazivni odontogeni tumor, koji se sastoji od epitelnih i mezenhimalnih neoplastičnih elemenata, ranije u literaturi često nazivan mekanim odontomom.

Epitelni elementi nastaju od dentalne lamine, caklinskog organa ili njihovih ostataka, a mezenhimalni od stanica zubne papile ili zubnog foli-

kula. Prema nalazima nekih autora (7, 8) pojavljuje se u mlađoj dobi, 15—25 godina, ali postoje slučajevi pojave tumora i u ranom djetinjstvu (9). Tvorba raste polagano i bezbolno napuhuje kost, češće u mandibuli nego u maksili, u regiji očnjaka do molara. Rendgenološki nalaz nije tipičan i obično se nalazi monocistično prosvjetljenje oštih rubova, koje je nemoguće razlikovati od prosvjetljenja koje stvaraju ciste ili drugi epitelni tumori, mezenhimalni ili mješoviti odontogeni tumori, pa čak i neke netumorske tvorbe (gigantocelularni reaktivni granulomi). Makroskopski se nađe relativno oštro ograničena tumorska masa konzistencije fibroma, oštro ograničena, glatke površine katkada obavijena čahurom. Histološki nalaz obično pokazuje nakupine epitelnih stanica u bogatom vezivnom matriksu. Epitelne stanice su u nakupinama ili tračcima i svojim izgledom podsjećaju na stanice dentalne lamine ili stanice perifernih slojeva folikula ameloplastoma. One su kubične ili cilindrične, a vezivo slično dentalnoj papili, ponekad s tračcima kolagena.

PRIKAZ SLUČAJA

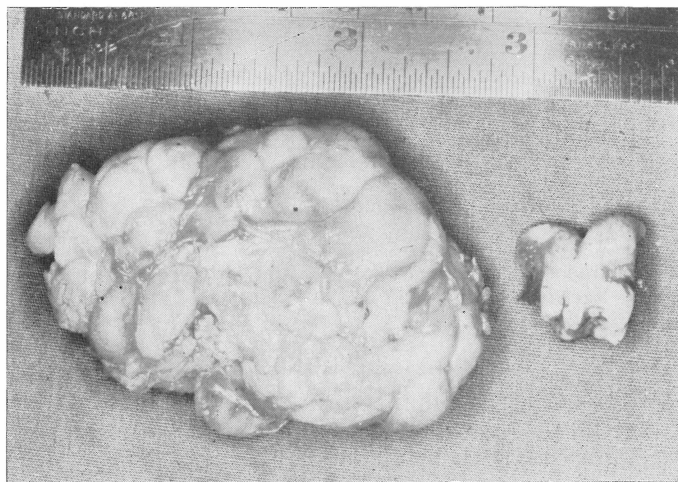
Bolesnik G. R. student, star 21 godinu, javio se u ambulantu Klinike za kirurgiju lica, čeljusti i usta u Zagrebu zbog zadebljanja i deformacije u području lijeve strane gornje čeljusti. Osim deformacije bolesnik nije imao drugih tegoba. Nakon rtg obrade kojom se utvrdi relativno oštro ograničeno koštano prosvjetljenje gustoće mekih tkiva s nešto mrljastih sjena koje imponiraju kao kalcifikati i bez resorpcije korjenova zuba, postavi se indikacija za primitak u bolnicu i operativno liječenje (slika 1.).



Slika 1. Rendgenogram prikazanog pacijenta. Vidljivo je prosvjetljenje u lijevom tuberu gornje čeljusti s mjestimice mrljastim sjenama i zonom kalcifikacije u gornjem dijelu.

U statusu se nađe djelomice defektno, ali sanirano zubalo. U gornjoj čeljusti s lijeve strane postoje samo prvi i drugi sjekutić te očnjak. Anamnestički se sazna da su premolari ranije ekstrahirani dok molari nisu nikada nikli.

U općoj anesteziji modificiranim rezom za radikalnu operaciju sinusa pristupi se na bukalnu stranu čeljusti. Nakon što se odvoji mukoperiost ne nađe se koštana stijenka u području pretkutnjaka, kutnjaka i tubera nego je mukoperiost direktno prirastao za tumor. Preparacijom mukoperiosta i ulaskom u pravi sloj, mukoperiost se lako odvaja od čvrstog, žilavog tumora, lobulirane površine (slika 2). Tumor u cjelosti ispunja sinus maksile i doseže do ulaska u etmoidni sinus. Lako se preparira od kosti, od koje

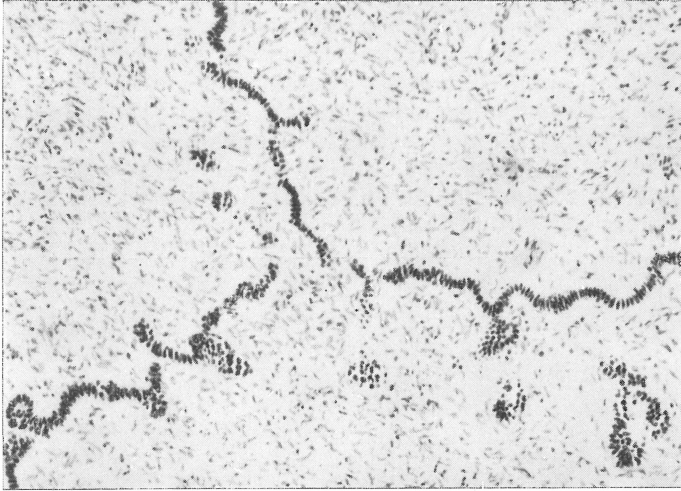


Slika 2. Preparat odstranjenog tumora

je ostalo očuvano samo dno orbite i medijalni zid sinusa prema nosu. Alveolarni greben, prednja i stražnja stijenka sinusa u cijelosti su razoreni. Defekt koji zaostane nakon što se odstrani tumor tamponira se jodoform trakom i drenira u donji nosni hodnik. Rana u vestibulumu se zatvori pojedinačnim šavovima. Postoperativni period protiče uredno i rana zaraštava per primam. Redovite ambulantne kontrole pokazuju uredan nalaz bez znakova recidiva.

Patohistološki nalaz: dobiveni materijal je tumor veličine $7 \times 4,5 \times 3$ cm, na prerezu bjelkast, srednje čvrst. Histološki je tkivo građeno od tračaka i pupoljaka odontogenih epitelnih stanica u celularnoj vezivnoj stromi sličnoj dentalnoj papili. Epitelne stanice su uglavnom dvoredne, kubične i mjestimice stvaraju pleksiformne tvorbe. Unutar nekih epitelnih pupoljaka nalazi se zvjezdoliki retikulum. U vezivnoj stromi se nalaze pojedini

načna manja žarišta homogenog, eozinofilnog hijaliniziranog veziva, što odgovara stvaranju primitivnog dentina (slika 3).



Slika 3. Tračci odontogenog epitela u obilnoj vezivnoj stromi. Vezivne stanice slične su stanicama zubne papile. (HE, 40x).

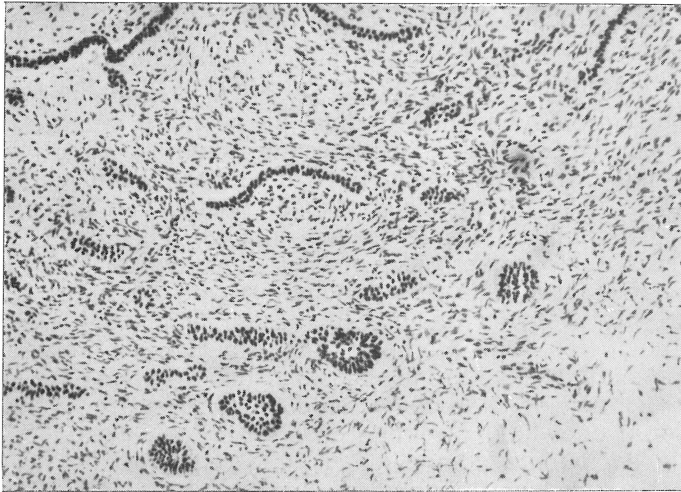
Zbog postavljene dijagnoze opisane prvi put u našoj praksi preparat tumora se pošalje na provjeru ekspertu WHO prof dr J. J. Pindborgu u Kopenhagen, koji je potvrdio dijagnozu i uvrstio tumor u registar WHO za odontogene tumore, slijedećim tekstom:

»The section shows the typical features of an ameloblastic fibroma, showing epithelial cords and islands in a cell-rich mesenchymal dental papilla-like tissue. Here and there foci of hyalinization/primitive dentine formation are seen. However, the overall picture is that of ameloblastic fibroma extending to all margins of the section examined. H. D.: Ameloblastic fibroma J. J. Pindborg/J. Reibel«

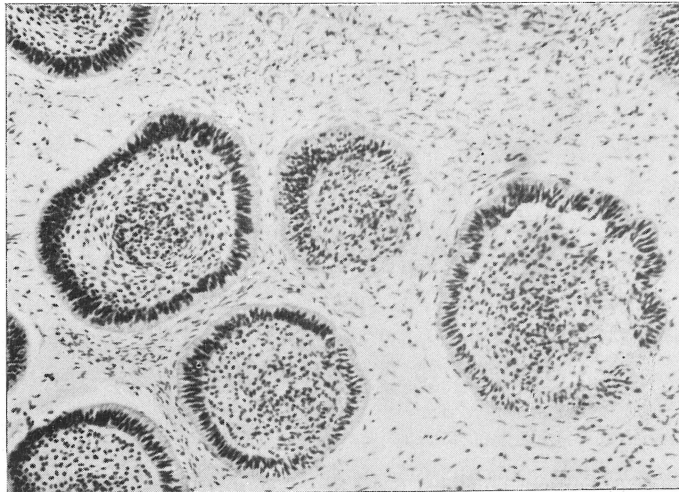
RASPRAVA

Dileme koje u vezi s međusobnim odnosom mješovitih odontogenih tumora postoje u literaturi uključuju i ameloblastički fibrom. Jedna je pretpostavka koju su 1952. god. postavili Cahan i Blum (10), da ameloblastički fibrom predstavlja samo fazu u razvoju odontoma preko faze ameloblastičkog fibro-odontoma. Ti autori smatraju da se radi o istom tumoru i da je razlika između ameloblastičkog fibroma i odontoma u tome u kojoj fazi

se tvorba nađe, tj. rendgenski i klinički nalaz odgovaraju fazi sazrijevanja tumora. Mogući prilog takvoj teoriji je i članak Mackynneya (11) koji pokazuje mekanu i kalcificiranu fazu razvoja rastavljeno složenog (compaund)



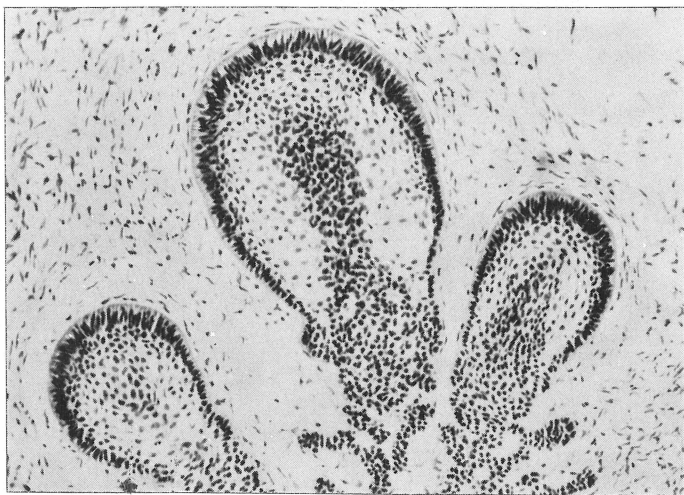
Slika 4. Tračci i manje nakupine odontogenog epitela u obilnoj vezivnoj stromi (HE, 40x).



Slika 5. Epitelni odontogeni elementi u vezivnoj stromi stvaraju oblike folikula. Stanice su na rubovima kubične i okružuju stanice koje su slične zvjezdastom retikulumu (HE, 40x).

odontoma kod istog bolesnika. Sličnu su pretpostavku djelomice podržali Eversole i sur. (12), iako ne odbacuju mogućnost da tumori nastaju de novo na određenom stupnju odontogeneze i ne prolaze kroz daljnje faze razvoja, pa njihova histološka slika ovisi i odgovara prvenstveno stupnju odontogeneze na kojem su se razvili. Klinička ispitivanja tih autora podupiru akve pretpostavke, ali je Gardner (8) tim ispitivanjima našao značajnu zamjerku. Teško je naime vrednovati pojavu određenih tumora, ako ne postoje sigurni histološki kriteriji na osnovi kojih bi ih mogli razlikovati.

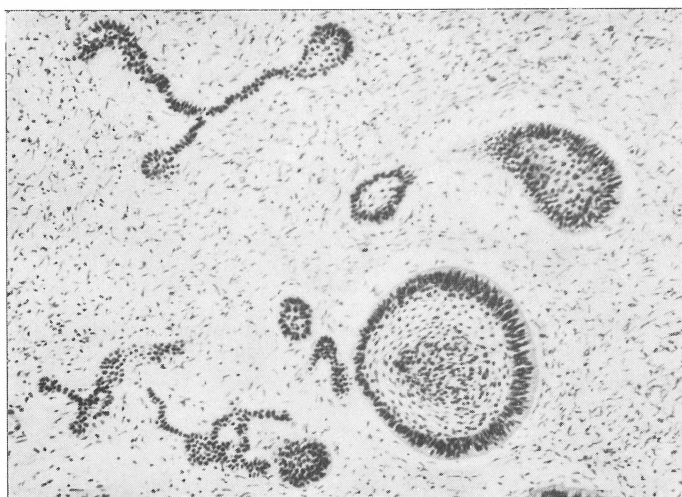
Druga je, vjerojatno točnija tvrdnja, da odontom stvarno prolazi kroz faze razvoja i da možemo naći fazu mekanog tumora u kojoj još ne postoji calcificirano tkivo, međutim meko tkivo u toj fazi teško je razlikovati od kiva ameloblastičkog fibroma, koji također postoji kao zaseban patološki entitet. Jedini mogući kriterij za razlikovanje tih dviju tvorbi su rendgenske i kliničke karakteristike. Kako postoje slučajevi da se ameloblastički fibromi razvijaju u fazi kada je odontogeneza već završena, tj. u kasnijoj životnoj dobi, pretpostavka Chana i Bluma (10) gubi svoje uporište. Kada bi postojao postupni razvoj tvorbe iz ameloblastičkog fibroma u odontom, onda bi se ameloblastički fibromi nalazili u mlađoj dobnoj skupini, ameloblastički fibro-odontomi u srednjoj, a odontomi u starijoj dobnoj skupini. Dni se međutim pojavljuju ravnomjerno u istoj dobnoj skupini, pa čak postoje i ranije spomenuta odstupanja, tj. ameloblastički se fibromi pojavljuju u starijoj dobi, a odontomi u ranoj dječjoj dobi.



Slika 6. Epitelni pupoljci. Jasno se razabiru karakteristike odontogenog epitela (HE, 40x).

Postoje također razna razmišljanja o odnosima ameloblastičkog fibro-odontoma i takozvanog ameloblastičkog odontoma, koje prema Hookeru

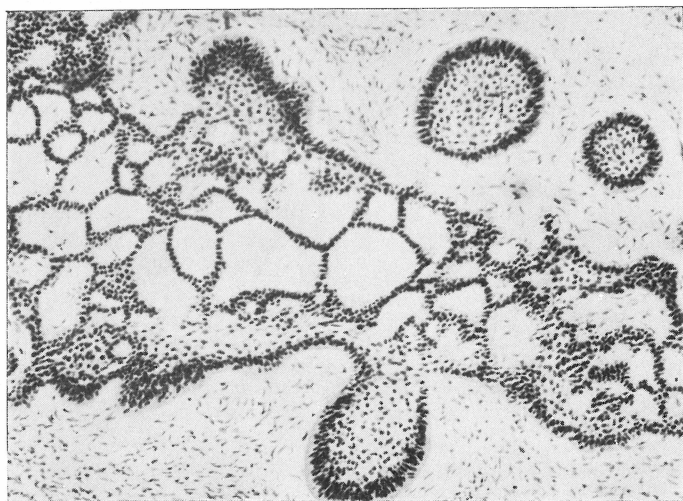
(13) ne treba miješati jer se radi o tvorbama različita ponašanja. Ameloblastički fibro-odontom predstavlja naime kombinaciju ameloblastičkog fibroma i složenog odontoma i u ponašanju je neagresivan poput ameloblastičkog fibroma. Ameloblastički odontom je lokalno agresivnih karakteristika i predstavlja kombinaciju ameloblastoma i složenog odontoma i on se u suvremenoj literaturi označava terminom odontoameloblastom, koji potpunije i preciznije određuje karakter tvorbe, pa taj naziv treba upotrebljavati, a naziv ameloblastički odontom treba izbjegavati jer povećava zbrku koja ionako postoji u ovoj problematici.



Slika 7. Tračci i folikuli odontogenog epitela u vezivnoj stromi (HE, 40x).

Konačno, kada se govori o mješovitim odontogenim tumorima, spominje se i termin ameloblastički fibrodentinom, koji također ne treba prihvatiti, jer se radi o odontogenom fibromu tipa WHO (8, 14). U svim ovim razmatranjima potrebno je spomenuti često spominjane slučajeve recidiva ameloblastičkog fibroma koji su vjerojatno posljedica krive patološke procjene ili neadekvatnog kirurškog liječenja (15, 16) i mogućnosti maligne transformacije primarno benignih ameloblastičkih fibro-odontoma u ameloblastički fibrosarkom, o čemu također postoje podaci u literaturi (17, 18). Prikazani slučaj ameloblastičkog fibroma svojim karakteristikama ide u prilog teoriji da odontogeni tumori tog tipa ne prolaze daljnje faze razvoja. Dimenzije tumora govore za njegov dugotrajan rast, kroz koje bi se transformacija do oblika odontoma mogla dogoditi. S druge strane i ovaj tumor

nađen je kod mladića zrele dobi kada je odontogeneza gotovo završena, a ne u ranom djetinjstvu kada bi se on prema karakteristikama histološke građe očekivao.



Slika 8. Veća nakupina odontogenog epitela s pregradama, što daje pleksiformni izgled (HE, 40x).

ZAKLJUČAK

Mješoviti odontogeni tumori su još uvijek predmet interesa kliničara i patologa. Njihova velika sličnost u određenim slučajevima uzrokom je pretpostavki koje se najčešće teško mogu dokazati. Upotreba raznih sinonima komplicira problematiku i ne doprinosi njenom razjašnjavanju. Potreba kliničkih patologa je nužnost, a ovaj primjer je detalj koji to potvrđuje.

AMELOBLASTIC FIBROMA — CASE REPORT AND DISCUSSION ABOUT RELATIONSHIP OF MIXED ODONTOGENIC TUMORS

Summary

The authors have presented the case of ameloblastic fibroma of the upper jaw in 21 years old adult. Dimensions of the tumor, which were the result of long standing growth, and the occurring at the age when odontogenesis was practically completed, have supported the concept of distinct pathologic entity, but have not been agree with the theory of interrelationship of ameloblastic fibroma, ameloblastic fibroodontoma and odontoma. In the context of those two studies the authors have discussed relationship of the mixed odontogenic tumors.

Key words: ameloblastic fibroma, odontogenic tumors

Literatura

1. ČUPAR I. Odontomi. Folia stomatologica 1940; 9/1:13—18.
2. ČUPAR I. Kirurgija glave i vrata, II knjiga, Zagreb, JAZU, 1975.
3. MIŠE I, KNEŽEVIĆ G. Odontomi s atipičnom kliničkom slikom. Acta stomatol croat 1971; 6:117—123.
4. KNEŽEVIĆ G. Pojam i značenje odontoma. Acta stomatol croat 1977; 11: 84—90.
5. KNEŽEVIĆ G. Odontogeni tumori u teoriji i praksi. Acta stomatol croat 1977; 11:167—175.
6. PILAR-SVOBODA B, KNEŽEVIĆ G. Mikrosomi čeljusti. Chir Maxillofac Plast 1974; 9:11—17.
7. LUCAS R B. Pathology of Tumours of the Oral Tissues, 3rd ed, Edinburgh, London, New York, Churchill Livingstone, 1976.
8. GARDNER D. G. The mixed odontogenic tumours. Oral Surg 1984; 58: 166—168.
9. HUEBSCH R F, STEPHENSON T D. Recurrent ameloblastic fibroma in 3-year old boy. Oral Surg 1956; 9:707—714.
10. CHAN L R, BLUM T. Ameloblastic Odontoma: case report critically analysed. J Oral Surg 1952; 10:169—170.
11. MCKINNEY A L. The development of a compound odontoma. J Dent Child 1984; 51:146—147.
12. EVERSOLE L R, TOMICH C E, CHER-RICK H M. Histogenesis of odontogenic tumours. Oral Surg 1971; 32: 569—581.
13. HOOKER S P. Ameloblastic odontoma: An analysis of twenty-six cases. Oral Surg 1967; 24:375—376.
14. DUNLAP C R, BARKER B C. Central odontogenic fibroma of the WHO type. Oral Surg 1984; 57:390—394.
15. MILLER A S, LOPEZ C F, PULLON P A, ELZAY R P. Ameloblastic fibro-odontoma. Oral Surg 1967; 41:354—365.
16. TRODAHL J N. Ameloblastic fibroma; a survey of cases from the Armed Forces Institute of Pathology. Oral Surg 1972; 33:547—558.
17. HOWELL R M, BURKES E J. Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg 1977; 43:391—401.
18. SPOUGE J D. Odontogenic tumours. A unitarian concept. Oral Surg 1967; 24: 392—403.