

HET AMELOBLASTISCH FIBRO-ODONTOOM

BESCHOUWINGEN NAAR AANLEIDING VAN EEN GEVAL

J. G. A. M. DE VISSCHER
K. G. H. VAN DER WAL
N. P. J. B. SIEVERING

*Uit de afdeling Mond- en Kaakchirurgie
van de Katholieke Universiteit te Nijmegen.
Hoofd: Prof. C. A. Merckx (vanaf 1 november 1979
Prof. H. P. M. Freihofer).*

T. A. J. M. MANSCHOT
U. J. G. M. VAN HAELST

*Uit de afdeling Pathologische Anatomie
van de Katholieke Universiteit te Nijmegen.
Hoofd: Prof. Dr. G. P. Vooy's.*

Trefwoorden: Mondheelkunde – Ameloblastisch fibro-odontoom

Inleiding

Het ameloblastisch fibro-odontoom is een weinig voorkomende odontogene tumor, die zich histologisch kenmerkt door het simultaan voorkomen van een tweetal morfologisch te onderscheiden componenten van ectodermale en mesodermale origine (Pindborg e.a., 1971). De tumor vertoont overeenkomst met het ameloblastisch fibroom, dat zich kenmerkt door vele eilandjes en strengetjes van odontogeen epitheel die gelegen zijn temidden van, een op papilla dentis gelijkend, mesenchymaal stroma.

Daarnaast wordt een odontoom-achtige structuur aangetroffen, die samengesteld is uit harde tandstructuren zoals glazuur, dentine en cement. De rangschikking van deze gemineraliseerde structuren kan min of meer regelmatig zijn waardoor in het fibromyxoid weefsel abortieve tandvorming wordt waargenomen.

Volgens Hooker (1967) komt de afwijking driemaal zo vaak bij mannen als bij vrouwen voor. Slootweg (1979) vindt daarentegen bij een serie van 46 patiënten een geringe voorkeur voor het mannelijk geslacht van 58%. In 73.3% van de gevallen zijn de patiënten jonger dan 20 jaar (Tsagaris, 1972). De in de literatuur vermelde gemiddelde leeftijd waarop de aandoening wordt gediagnostiseerd varieert van 10,4 jaar (Slootweg, 1979) tot 13 jaar (Tsagaris, 1972). De afwijking komt zowel in de mandibula als in de maxilla

voor en toont een predilectie voor de premolaar-molaarstreek van de mandibula met 45%. De premolaar-molaarstreek en de frontregio van de maxilla zijn resp. in 28% en 20% van de gevallen aangedaan (Slootweg, 1979). Het ameloblastisch fibro-odontoom geeft in het algemeen geen klachten. De centraal in de mandibula of maxilla gelegen tumor kan zich klinisch uiten door een langzaam in grootte toenemende zwelling. Hierdoor kan een asymmetrie van het gelaat ontstaan. De tumor is goed afgekapseld en gaat frequent gepaard met doorbraakstoornissen en verplaatsingen of malposities van één of meer gebitselementen of tandkiemen (Gorlin e.a., 1961). Compressie van een zenuw door de tumor kan neuralgiforme pijnklachten veroorzaken (Sanders e.a., 1974). Ook een secundaire ontsteking behoort tot de mogelijkheden (Forsberg e.a., 1961).

De röntgenologische bevindingen van het ameloblastisch fibro-odontoom zijn niet karakteristiek en vertonen veel overeenkomst met die van het complex odontoom (Sanders e.a., 1974). De röntgenopname toont een circumschripte, uni- of multiloculaire radiolucentie met centraal radiopake structuren die de meest uiteenlopende vormen en afmetingen kunnen bezitten. Afhankelijk van de grootte van de tumor kunnen door de expansieve groei verplaatste gebitselementen of tandkiemen op de röntgenfoto zicht-

Samenvatting:

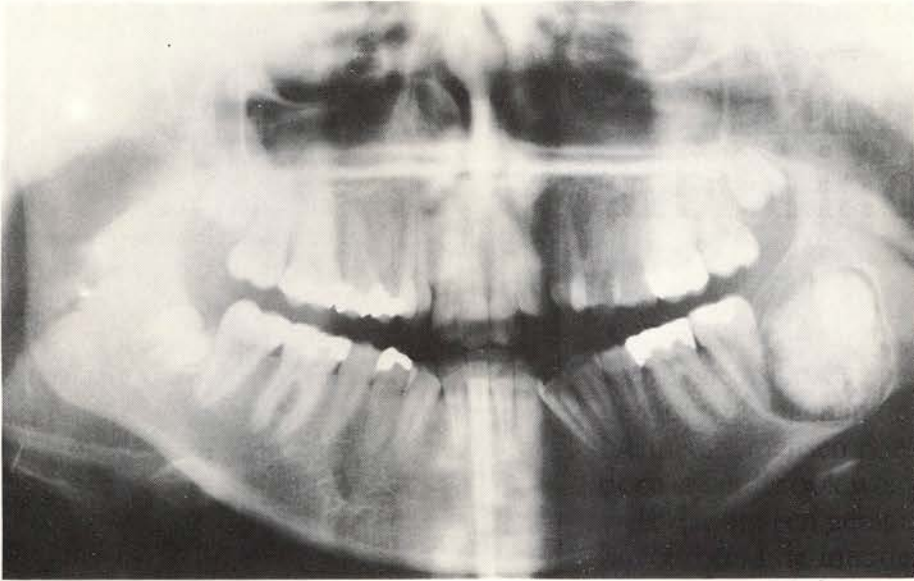
Een geval van een ameloblastisch fibro-odontoom bij een 14-jarig meisje wordt beschreven. De tumor was gelokaliseerd in de linker angulus mandibulae in samenhang met een geïmpacteerde derde molaar. Aan de hand van de literatuur wordt ingegaan op de klinische symptomen, röntgenologische bevindingen, therapie en classificatie.

baar zijn. Bij een zeer grote tumor treedt uitbochtiging van de corticalis op. Resorptie van gebitselementen komt zelden voor (Gorlin e.a., 1961).

Het röntgenologische beeld kan passen bij het complex odontoom, de calcificerende epitheliale odontogene tumor, de calcificerende epitheliale odontogene kyste, het cementoblastoom, het centraal calcificerend fibroom en het osteoïd osteoom. In een enkel geval zijn er in het radiolucente gebied geen gecalcificeerde structuren waar te nemen, waardoor de afwijking röntgenologisch overeenkomst kan vertonen met een folliculaire kyste (Sanders e.a., 1974).

Ziektegeschiedenis

Een 14-jarig meisje wordt door de tandarts verwezen met een geringe zwelling ter hoogte van de linker wang. De patiënte ondervindt hiervan geen klachten en kan niet aangeven hoelang de betreffende zwelling aanwezig is. Bij extra-oraal onderzoek is er een botharde zwelling aanwezig ter plaatse van de linker angulus mandibulae. De bedekkende huid is normaal van kleur en consistentie en verschuifbaar over de afwijking. De sensibiliteit van de nervus mentalis is ongestoord. Het intra-orale onderzoek toont een goed onderhouden dentitie met een ongestoorde occlusie. Met uitzondering van de derde molaren zijn alle gebitselementen aanwezig. Ter plaatse van het trigonum retromolare links bevindt zich een, bij palpatie, niet pijnlijke, beenharde zwelling met welving van de buccale en linguale corticalis



Afb. 1. Het orthopantomogram toont ter plaatse van de angulus mandibulae een circumscripate caviteit met een sclerotische rand. Hierin is een waaivormige, gecalcificeerde tumor gelegen; in het craniodorsale deel bevindt zich de gereteneerde 38.

van het corpus mandibulae. De intacte overliggende mucosa is normaal van kleur en over de zwelling verschuifbaar. De 37 is enigszins mobiel. De gebitselementen in dit kwadrant reageren positief op de vitaliteitstest.

Het orthopantomogram toont een uniloculaire caviteit van ongeveer 3 cm in doorsnede die gelokaliseerd is op de overgang van het corpus naar de ramus mandibulae links (afb. 1). In deze holte bevindt zich een radiaal gestructureerde radiopake tumor met een excentrisch gelegen gecalcificeerd gebied in het cranio-dorsale deel, hetgeen mogelijk de ontbrekende derde molaar is. De tumor is omgeven door een wisselend brede radiolucente zone met randsclerose. De 37 vertoont geen wortelresorptie. Distaal van dit element is het normale alveolaire bot afwezig en daar lijkt het element in de afwijking te staan.



Afb. 2. De tandfoto geeft een detail van afb. 1. De tumor is omgeven door een radiolucente zone.

De voor-achterwaartse mandibulopname toont een geringe uitbochtiging van de buccale en linguale corticalis. De tandfilm van de regio 38 geeft een gedetailleerd overzicht van de radiolucente zone en de centraal gelegen calcificatie met radiaire bouw in de periferie (afb. 2).

Het fysisch onderzoek en de uitslagen van het klinisch-chemisch onderzoek leveren geen bijzonderheden op.

Behandeling

Onder algehele anesthesie wordt de 37 vanwege de nauwe relatie met de tumor verwijderd. De incisie tegen de

ramus ascendens mandibulae wordt langs de tandhalzen verlengd tot de 34. Na afschuiven van het mucoperiost blijkt dat de tumor nergens het overliggende bot heeft geperforeerd. Met een ronde boor en frees wordt het overliggende bot verwijderd. De tumor wordt vervolgens in toto geënuceerd.

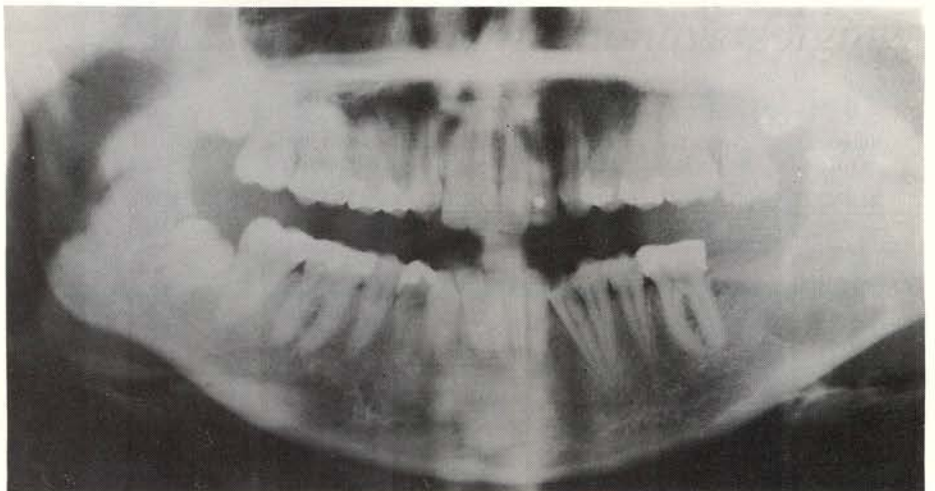
Macroscopisch is er geen ingroei in het omgevende bot waarneembaar. De intacte nervus alveolaris inferior is op de bodem van het ontstane defect zichtbaar.

Het operatiedefect wordt getamponneerd met een jodoform-vaselinegaas. Het postoperatieve beloop is ongestoord.

Tijdens de poliklinische controles wordt de tampon wekelijks verwisseld en blijkt het defect goed dicht te granuleren. Twee jaar postoperatief worden bij het klinisch onderzoek geen bijzonderheden aangetroffen. Het orthopantomogram toont ter plaatse van de linker angulus mandibulae een normale trabeculaire botstructuur en er zijn geen aanwijzingen voor een recidief (afb. 3).

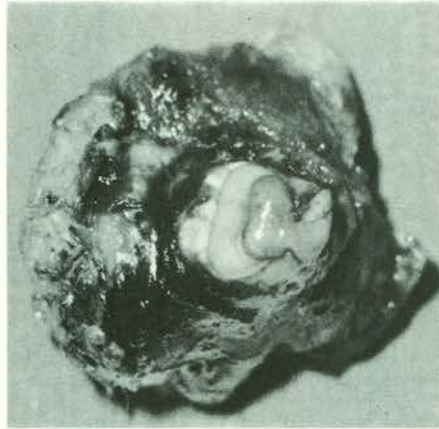
Pathologisch-anatomisch onderzoek

Macroscopisch is de tumor een beenhard, rond weefselfragment met een doorsnede van 3 cm en een gewicht van 23 gram. In de tumor bevindt zich een gebitselement, de 38, met een onvolledige wortelformatie dat gemakkelijk uit de tumor wordt verwijderd



Afb. 3. De röntgenopname twee jaar postoperatief geeft geen aanwijzingen voor een recidief. Hoewel de vage contour van de botcaviteit nog waarneembaar is, blijkt het gehele defect gevuld met bot met een normale trabeculaire structuur.

(afb. 4). Het materiaal wordt ontkalkt. Bij microscopisch onderzoek worden verschillende beelden aangetroffen: in een deel van de tumor is losmazig, mesenchymaal, myxoid stroma aanwezig met verspreid kleine, stervormige cellen. Tevens bevinden zich in dit losmazige bindweefsel eilandjes en anastomoserende strengtjes van odontogeen epitheel die aan de bindweefselzijde cilindrische epitheelcellen bezitten, welke gelijkenis vertonen met ameloblasten. Aan de binnenzijde zijn de cellen kleiner en zij vormen een reticulum stellare (afb. 5a en 5b). Mitosen worden zo goed als niet gevonden. Daarnaast is in een ander gedeelte van de tumor uitgebreide vorming van harde structuren aantoonbaar met o.a. dentine, cement en glazuur, die overigens vrij regelmatig gerangschikt zijn (afb. 6a). Op enkele plaatsen wordt zelfs abortieve tandvorming gezien



Afb. 4. Macroscopisch beeld van de tumor met de geïmpacteerde derde molaar waarvan de wortels nog niet afgevormd zijn.

(afb. 6b). De tumor is omgeven door een soort pseudo-kapsel van tamelijk dichtgevoegd rijp collageen bindweefsel.

De diagnose luidt: ameloblastisch fibro-odontoom.

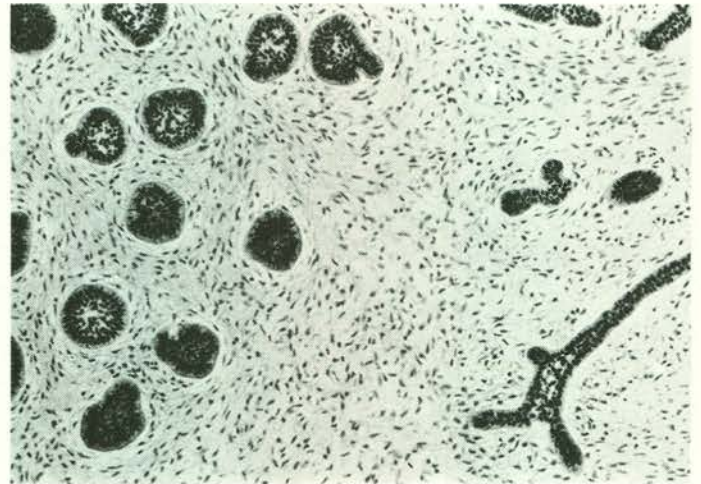
Beschouwingen

In het verleden werd een ameloblastisch fibro-odontoom niet als een aparte entiteit onderkend en meestal geklassificeerd binnen de grote groep van de ameloblastische odontomen en, minder frequent, bij de ameloblastomen, de ameloblastische fibromen en complexe en samengestelde odontomen (Frissell en Shafer, 1953; Gorlin e.a., 1961). Onder de term ameloblastisch odontoom werden alle tumoren gerangschikt die histologisch zowel het beeld van een odontoom als van een ameloblastoom vertoonden (Gorlin e.a., 1961).

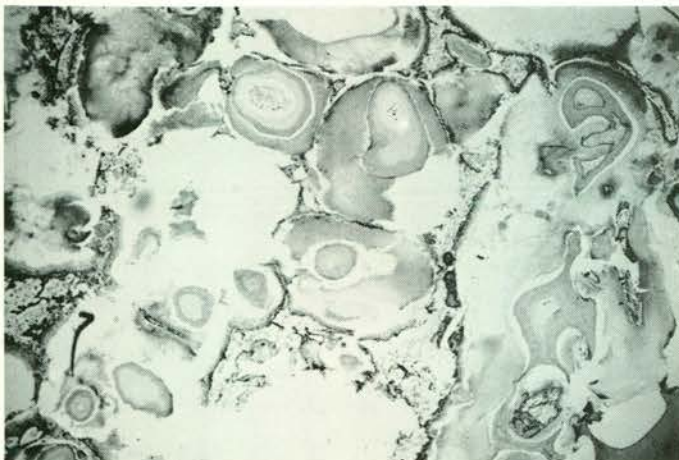
Hooker (1967) bracht in de bovengenoemde groep van de ameloblastische odontomen onderscheid aan en herkende het ameloblastische fibro-odontoom als aparte entiteit. Kenmerkend is het voorkomen van papilla dentis-



Afb. 5a. Histologisch beeld van de rand van de tumor. In het papilla dentisachtige stroma zijn nestjes van odontogeen epitheel gelegen met aan de periferie een pseudokapsel (H.E.-kleuring, $\times 25$).



Afb. 5b. Detail van afb. 6a met in het losmazige mesenchymale stroma nestjes van odontogeen epitheel (H.E., $\times 100$).



Afb. 6a. In een ander deel van de tumor vindt vorming van 'harde' tandstructuren plaats, zoals glazuur, dentine en cement (H.E., $\times 25$).



Afb. 6b. Abortieve tandvorming (H.E., $\times 100$).

achtig stroma met daarin eilandjes odontogeen epitheel en harde structuren als glazuur en dentine. Deze differentiatie is van belang omdat de ameloblastische fibro-odontomen een betere prognose hebben en minder agressieve chirurgie behoeven dan de overige vormen van de oorspronkelijke grote groep van de ameloblastische odontomen. Deze overige vormen worden nu tot de odonto-ameloblastomen gerekend (Pindborg e.a., 1971).

Histologisch treft men bij deze laatstgenoemde groep zowel odontoom- als ook ameloblastoomachtig weefsel aan, doch ontbreekt het voor het ameloblastisch fibro-odontoom kenmerkende papilla dentisachtige stroma. Ook zijn de ameloblastoom-partijen in het odonto-ameloblastoom min of meer hetzelfde als bij de klassieke ameloblastomen.

Pindborg e.a. (1971) splitsen het vroegere begrip ameloblastisch odontoom in 3 entiteiten: het complex en compound odontoom, het ameloblastisch fibro-odontoom en het odonto-ameloblastoom. Laatstgenoemde auteurs gebruiken de term ameloblastisch odontoom niet meer omdat er, zoals uit bovenstaande blijkt, verwarring kan ontstaan. Zij zien het ameloblastisch fibro-odontoom als een in ontwikkeling zijnd odontoom. Ook Eversole e.a. (1971) merken op dat het ameloblastisch fibro-odontoom wel eens een zich ontwikkelend odontoom kan zijn of dat er sprake is van een combinatie van een ameloblastisch fibroom en een odontoom.

Ridett (1944) beschreef een 2-jarig patiëntje met een ameloblastisch odontoom (in de huidige opvatting is hier sprake van een ameloblastisch fibro-odontoom). De diagnose werd bevestigd middels een biopsie en er werd voorlopig geen therapie ingesteld. Na 10 maanden werd de tumor verwijderd en na histologisch onderzoek bleek er toen sprake te zijn van een complex odontoom.

Ook Slootweg (1979) beschouwt het ameloblastisch fibro-odontoom als een onrijp voorstadium van een complex odontoom. Voor de door hem in de literatuur aangetroffen opvatting dat het ameloblastisch fibro-odontoom op zijn beurt voorafgegaan zou worden door het ameloblastisch fibroom vindt deze auteur geen grond omdat de gemiddelde leeftijd waarop de laatstgenoemde afwijking wordt gediagnostiseerd later ligt.

Unaniem is men van mening dat enucleatie van de tumor de aangewezen therapie is (Sanders e.a., 1974; Miller e.a., 1976; Hanna e.a., 1976). Tsagaris (1972) meldt één recidief na verwijdering van 29 verschillende ameloblastische fibro-odontomen. Hij merkt op dat het recidief zeer waarschijnlijk te wijten is aan een incomplete verwijdering.

Sanders e.a. (1974) vermoeden dat het verkeerd beoordelen van het operatiepreparaat en foutieve klassificatie als een ameloblastisch fibro-odontoom een verklaring kan zijn voor de in de literatuur beschreven recidieven.

Howell en Burkes (1977) beschrijven twee patiënten met een ameloblastisch fibro-odontoom bij wie, na verwijdering, een fibrosaroom ontstond. Zij nemen aan dat maligne ontaarding frequenter voorkomt dan in het verleden werd aangenomen, doch niet zo vaak dat er reden is tot agressievere therapie.

Gezien de bovengenoemde bevindingen is een langdurige klinische en röntgenologische controle van deze afwijking na chirurgische enucleatie toch niet noodzakelijk.

Summary:

Title: Ameloblastic fibro-odontoma. Report of a case.

A case of an ameloblastic fibro-odontoma in an 14-year old girl is reported. The lesion was loca-

ted in the left mandibular angle and connected with an impacted third molar.

A brief review of the literature of ameloblastic fibro-odontoma with special attention to the clinical behaviour, radiographic characteristics, recommended therapy and classification is presented.

Literatuur:

1. Eversole, L. R., Tomich, C. E., Cherrick, H. M. (1971): Histiogenesis of odontogenic tumors. *Oral Surg* 32: 569-581.
2. Forsberg, A., Lagergren, C., Martensson, G. (1961): Ameloblastic odontoma. Report of a case. *Oral Surg* 28: 726-729.
3. Frissell, C. T., Shafer, W. G. (1953): Ameloblastic odontoma. Report of a case. *Oral Surg* 6: 1129-1133.
4. Gorlin, R. J., Chaudhry, A. P., Pindborg, J. J. (1961): Odontogenic tumors. Classification, histopathology, and clinical behavior in man and domesticated animals. *Cancer* 14: 73-101.
5. Hanna, R. J., Regezi, J. A., Hayward, J. R. (1976): Ameloblastic fibro-odontoma: report of case with light and electron microscopic observations. *J Oral Surg* 34: 820-825.
6. Hooker, S. P. (1967): Ameloblastic odontoma: an analysis of twenty-six cases. *Oral Surg* 24: 375-376.
7. Howell, R. M., Burkes jr., E. J. (1977): Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. *Oral Surg* 43: 391-401.
8. Miller, A. S., Lopez, C. F., Pullon, P. A., Elzay, R. P. (1976): Ameloblastic fibro-odontoma. Report of seven cases. *Oral Surg* 41: 345-365.
9. Pindborg, J. J., Kramer, I. R. H., Torloni, H. (1971): Histological typing of odontogenic tumors, jaw cysts, and allied lesions. World Health Organisation. Geneva.
10. Ridett, S. A. (1944): Composite odontome at very early age. *Br Dent J* 77: 129-131.
11. Sanders, D. W., Kolodny, S. C., Jacoby, J. K. (1974): Ameloblastic fibro-odontoma: report of case. *J Oral Surg* 32: 281-285.
12. Slootweg, P. J. (1979): Odontogene mengtumoren. Acad. Proefschrift, Utrecht.
13. Tsagaris, G. T. (1972): A review of the ameloblastic fibro-odontoma. M. S. Thesis, George Washington University, Washington, D. C.

November 1980. St. Radboudziekenhuis, Geert Groteplein Zuid 14, 6525 GA Nijmegen.