

Nadir Görülen Büyüklükte Bir Adenomatoid Odontojenik Tümör Olgusu ve Literatür Derlemesi

A Case of Unusually Large Adenomatoid Odontogenic Tumor and Review of the Literature

İlkay PEKER,^a
Meryem TORAMAN ALKURT,^a
Fatma ZOR,^b
Benay TOKMAN^c

^aOral Diagnoz ve Radyoloji BD,

^bAğız, Diş Çene Hastalıkları ve
Cerrahisi AD,

^cOral Patoloji BD,
Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi,
Ankara

Geliş Tarihi/Received: 30.07.2008

Kabul Tarihi/Accepted: 24.09.2008

Yazışma Adresi/Correspondence:

İlkay PEKER

Gazi Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi,

Oral Diagnoz ve Radyoloji BD, Ankara

TÜRKİYE/TURKEY

drdtilkay@gmail.com

ÖZET Adenomatoid odontojenik tümör (AOT), nadir görülen, mine organı, dental lamina, mine epiteli ve mine epiteli artıklarından gelişen benign bir odontojenik tümördür. Bu makalenin amacı, alt çenenin ön bölgesinde meydana gelmiş, nadir görülen büyüklükte bir AOT olgusunun klinik ve radyografik özelliklerini değerlendirmek ve AOT hakkında detaylı bir literatür derlemesi sunmaktır. Otuz beş yaşındaki erkek hastanın klinik muayenesinde, sol alt lateral diştten sağ alt birinci büyük azı diş bölgesine kadar uzanan şişlik, şişliğe bağlı vestibül derinlikte şişlaşma ve etkilenen dişlerde yer değiştirme izlendi. Radyografik incelemede ise sağ alt birinci büyük azı diştten başlayıp, sağ gömülü kanin diş çevreleyen ve sol alt kanin diş bölgesine kadar uzanan, iyi sınırlı, yaklaşık 7 cm çapında uniloküler radyolüsent bir alan izlendi. Ayrıca ilgili bölgedeki dişlerde yer değiştirme ve kemikte ekspansiyon mevcuttu. Lezyon cerrahi enükleasyon ile çıkarıldıktan sonra histopatolojik inceleme yapıldı ve AOT tanısı konuldu.

Anahtar Kelimeler: Odontojenik tümör, gömülü diş

ABSTRACT Adenomatoid odontogenic tumor (AOT) is relatively uncommon benign odontogenic tumor, which develops from the enamel organ, dental lamina, enamel epithelium or their remnants. The aim of this report was to evaluate clinic and radiographic features of unusually large AOT case which occurred in the mandibular anterior region and to review of the literature about the subject. In clinical examination, a swelling at the region of left mandibular lateral tooth to right first molar tooth, shallowing of vestibular sulcus and migration of affected teeth were observed in a 35 year old man. Radiographic examination revealed well defined unilocular radiolucent area with approximately 7 cm diameter which surrounded impacted right mandibular canine extending between right mandibular first molar and left canine teeth with migration of affected teeth and bone expansion. After the lesion was removed by surgical enucleation, histopathological examination was performed and lesion was diagnosed as AOT.

Key Words: Odontogenic tumor; tooth, impacted

Türkiye Klinikleri J Dental Sci 2009;15(2):151-6

Adenomatoid odontojenik tümör (AOT), görece olarak nadir görülen, mine organı, dental lamina, mine epiteli ve mine epiteli artıklarından gelişen benign odontojenik tümördür.¹ 1900'lü yılların başlarında Steensland, James ve Horbes klinik ve mikroskopik özellikleri bakımından tam olarak AOT tanısını doğrulamayan bazı olguları "ilk olgu" olarak rapor etmelerine rağmen, hem klinik hem mikroskopik özellikleri bakımından AOT tanısını doğrulayan ilk olgu 1915 yılında Harbitz tarafın-

dan rapor edilmiştir.²⁻⁵ Önceleri AOT'nin, ameloblastomanın histolojik bir varyantı olduğu düşünülerek adenoameloblastoma, adenoameloblastik odontoma, psödoadenomatöz ameloblastoma gibi birçok farklı isimler kullanılmıştır.^{6,7} Ancak daha sonra farklı klinik özellikleri ve biyolojik davranışı nedeniyle ayrı bir lezyon olduğu kabul edilmiş ve 1971 yılında Dünya Sağlık Örgütü'nün önerisiyle "adenomatoid odontojenik tümör" terimi kullanılmaya başlanmıştır.⁸

AOT'nin tüm odontojenik tümörler içinde görülme sıklığı %2.2'den %7.1'e kadar değişmektedir.^{9,10} Ancak çok merkezli yapılmış yeni bir çalışmada AOT'nin görülme sıklığının %0.6'dan %38.5'e kadar değişiklik gösterdiği bildirilmiştir.¹¹ AOT hem intraosseöz hem de ekstraosseöz olarak meydana gelebilir. İntraosseöz tip, radyografik olarak foliküler ve ekstrapoliküler olarak ikiye ayrılır. En fazla görülen tipi olan (%73 oranında) foliküler tipte, radyografik olarak gömülü bir dişin kronunu veya kökün bir kısmını çevreleyen iyi sınırlı uniloküler radyolusensi izlenir ve bu nedenle ilk olarak dentijeröz veya foliküler kist olduğu düşünülür. Ekstrapoliküler tip %24 oranında ve radyografide sürmüş bir dişin kökleri üzerine süperpoze olan iyi sınırlı bir radyolusensi olarak görülür. Bu nedenle sıklıkla rezidüel, radiküler, globulomaksiller ve lateral periodontal kist olarak hatalı teşhis edilebilir. Ekstraosseöz meydana gelen periferik veya jinjival tip ise en az görülen (%3) tipidir. Diş etinde şişlik, alveoler kemikte erozyon oluşturabilir ve nadiren radyografik bulgu verir.^{5,9,12}

Bu makalenin amacı alt çene ön bölgesinde meydana gelmiş, nadir görülen büyüklükte bir AOT olgusunun klinik ve radyografik özelliklerini incelemek ve AOT hakkında detaylı bir literatür derlemesi sunmaktır.

OLGU SUNUMU

Otuz beş yaşındaki erkek hasta alt çene ön bölgesinde yaklaşık bir aydır mevcut şişlik nedeniyle kliniğimize başvurdu. Hastadan alınan medikal anamnezde herhangi bir sistemik hastalığı olmadığı, dental anamnezde ise ilk kez bir sene önce alt çene ön bölgenin lingualinde şişlik olduğu, hasta-

nın herhangi bir tedavi görmediği ve bir ay önce ağzı dışında şişlik meydana geldiği öğrenildi.

Ağız dışı muayenede orta hattan başlayıp sağ alt kanin-birinci küçük azı diş hizasına uzanan şişlik, ağız içi muayenede ise sol alt lateral kesici dişten başlayıp sağ alt birinci büyük azı diş bölgesine kadar uzanan şişlik ve bu şişliğe bağlı vestibül derinlikte sığlaşma izlendi (Resim 1). Ayrıca alt sağ ve sol santral, lateral kesici dişler ve sol birinci küçük azı dişlerinde yer değiştirme mevcuttu (Resim 2). Sağ alt kanin diş ağızda görülmemekteydi ve hasta diş çekimi yapılmadığını belirtti. Vitalometrik incelemede sol alt santral, lateral, kanin dişler vital, sağ alt santral ve lateral kesici dişler devitaldi.



RESİM 1: Olgunun ağız dışı görüntüsü.

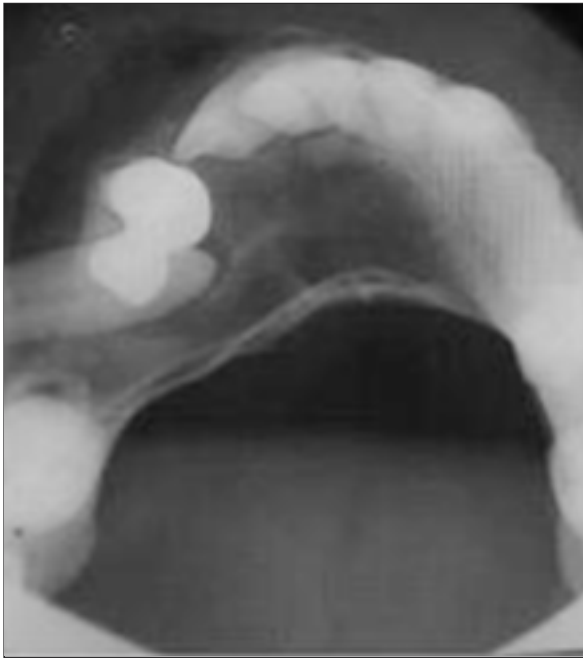


RESİM 2: Olgunun ağız içi görüntüsü.

Panoramik radyografıta sağ alt birinci büyük azı dişten başlayan, sağ gömülü kanin dişi çevreleyen ve sol alt kanin diş bölgesine kadar uzanan, iyi sınırlı, yaklaşık 7 cm çapında uniloküler radyolusent bir alan, ilgili bölgedeki dişlerde yer değiştirme ve kemikte ekspansiyon mevcuttu (Resim 3). Oklüzal radyografıta ise sağ alt birinci büyük azı dişten başlayan sol alt kanin diş bölgesine kadar uzanan radyolusent alan içinde yer yer radyopak alanların eşlik ettiği radyolusensi izlendi (Resim 4). Aynı zamanda sağ alt birinci küçük azı dişinde kron, sağ alt ikinci küçük azı diş kökü, sağ alt ikinci büyük azı dişinde çürük, sağ üst maksiller sinüste diş kökü, sol üst lateral-birinci büyük



RESİM 3: Olgunun panoramik radyografik görüntüsü.



RESİM 4: Olgunun oklüzal radyografik görüntüsü.

azı dişleri arasındaki köprü restorasyonu altında gömülü kalmış sol üst ikinci küçük azı dişi, alt çenede çift taraflı gömülü 20 yaş dişleri ve sol alt birinci büyük azı dişinde furkasyon bölgesine kadar uzanan çürük ve diş köklerinde periapikal radyolusensiler izlendi.

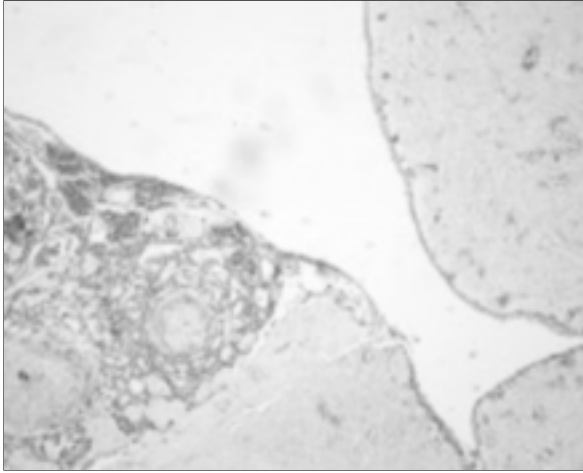
Klinik ve radyografik değerlendirme sonucunda sağ alt çenedeki lezyona dentijeröz kist ön tanısı konarak, hem lezyonun eksizyonu hem de diğer tedavilerin yapılması için hasta, cerrahi kliniğine sevk edildi. İlgili bölgede etkilenen tüm dişler (sol alt santral, lateral dişler ve sağ alt santral, lateral, kanin, birinci ve ikinci küçük azı dişleri) çekilerek lezyon enükleasyon ile çıkarıldı.

Olgunun histopatolojik incelemesinde köşeli işçi hücrelerden oluşan epitelin intrakistik proliferasyonu ile karakterize tümöral gelişim izlendi (Resim 5). Oval-veziküle nukleuslu tümör hücreleri rozet, girdap ya da nodüller oluşturacak tarzda gelişim göstermekteydi. Tümör içersinde yer alan karakteristik duktus ve/veya gland benzeri yapılar kolumnar hücreler tarafından çevrelenmişti. Tümör periferinde birkaç sıralı, küçük hiperkromatik nukleuslu, koyu eozinofilik sitoplazmalı hücrelerin oluşturduğu kordlar yer almaktaydı. Özellikle yalancı lümenlerin içinde ve rozet benzeri yapıların merkezinde düzensiz eozinofilik materyal mevcuttu (Resim 6). Lezyona 6.5 x 4.5 x 0.5 cm boyutunda AOT tanısı konuldu.

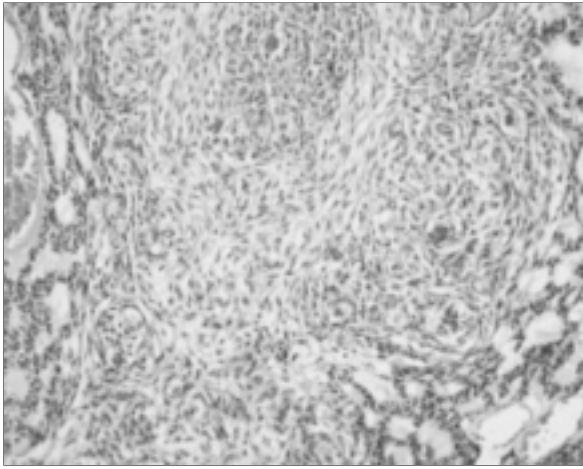
Sağ üst maksiller sinüsteki kök artıkları sinüs plastifi operasyonu ile, sol üst ikinci küçük azı dişi cerrahi eksizyonla uzaklaştırıldı. 36, 38 ve 48 no'lu dişler çekilerek hasta, rekürrens olasılığına karşı periyodik takibe alındı. Hastanın altı ay sonra kontrol muayenesi yapıldı, panoramik radyograf görüntüleri değerlendirilen hastada nüks tespit edilmedi (Resim 7).

TARTIŞMA

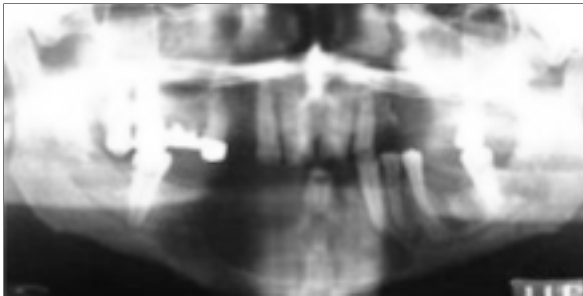
AOT için literatürde 4-80 yaşları arasında olgular bildirilmesine rağmen lezyonlar, genellikle 2. dekada (olguların yarısından fazlasında ergenlik öncesi dönemde), erkeklere oranla kadınlarda iki kat fazla, genellikle çenelerin ön bölgelerinde (olguların



RESİM 5: İntrakistik proliferasyonla karakterize tümöral gelişim (HE, x4).



RESİM 6: Rozet benzeri yapılar oluşturan tümör hücreleri ve eozinofilik birikimler (HE, x20).



RESİM 7: Olgunun altı ay sonraki panoramik radyografik görüntüsü.

%85'inde ikinci küçük azı dişlerin önünde) ve üst çenede alt çeneye oranla iki kat daha fazla ortaya çıkmaktadır.^{9,13,14} En fazla üst gömülü kanin diş olmak üzere (%40) AOT'ye, 4 kanin dişten biri

(%59) ve çok nadir olarak (%1) birinci ve ikinci büyük azı dişleri gibi sürememiş bir sürekli diş veya süt dişi eşlik eder.^{14,15} Bu nedenle AOT olgularının çoğu (%73) intraosseöz olarak gelişen foliküler tiptedir.¹² Bu makalede 35 yaşındaki erkek hastada sol alt lateral kesici dişten başlayıp sağ alt birinci büyük azı dişi bölgesine kadar uzanan ve sağ alt gömülü kanin dişi de içine alan foliküler tipte bir AOT olgusunun klinik ve radyografik özellikleri değerlendirildi.

AOT genellikle yavaş büyüyen asemptomatik şişlikler, ilgili bölgede eksik bir diş, etkilediği bölgedeki komşu dişlerde yer değiştirme gibi klinik bulgular verir. Yavaş büyümesi ve nadir olarak ağrı oluşturmaması nedeniyle çoğu hasta tarafından uzun yıllar tolere edilebilir ve dolayısıyla erken evrelerde belirlenemez.^{5,16-18} İntroosseöz lezyonların büyüklüğü genellikle 1-3 cm olmakla birlikte literatürde 7 cm ve 12 cm boyutlarında AOT olguları da bildirilmektedir.^{15,19,20} İncelediğimiz olguda yaklaşık bir yıldır alt çenede, hem ağız dışı hem ağız içi muayenede izlenebilen ağrısız bir şişlik, ilgili bölgedeki dişlerde yer değiştirme mevcuttu ve lezyon AOT için nadir görülen boyutlara (6.5 x 4.5 x 0.5 cm) ulaşmıştı.

Radyografik olarak AOT, dentijeröz kist, kalsifiye odontojenik kist ve tümör, odontojenik keratokist, globulomaksiller kist ve ameloblastoma gibi birçok odontojenik lezyona benzer görüntü verir.²¹ Özellikle foliküler tip, radyografide gömülü bir dişin kronunu veya kökün bir kısmını çevreleyen iyi sınırlı uniloküler radyolusensi şeklinde izlendiği için ilk bakışta çoğu zaman dentijeröz kist olarak teşhis edilir.^{15,22} AOT olgularının 2/3'ünde belirgin olmayan radyoopasiteler ve küçük çakıl taşı görünümünde kalsifikasyon alanları izlenebilmektedir. Radyolusent alanlar içindeki kalsifiye materyallerin görülebilmesi için periapikal radyograflar gereklidir.²³ Etkilenen bölgedeki dişlerde kemik ekspansiyonu, komşu dişlerde yer değiştirme ve nadiren kök rezorpsiyonu izlenir.^{19,24} İncelediğimiz olguda ağız içi ve dışındaki şişlikler nedeniyle öncelikle panoramik radyograf, daha detaylı inceleme için lezyonun büyüklüğü nedeniyle periapikal radyograf yerine oklüzal radyograf tercih edildi. Panoramik radyo-

grafta, sağ alt birinci büyük azı dişten başlayan, gömülü kanin dişi çevreleyen ve sol alt kanin diş bölgesine kadar uzanan, iyi sınırlı, uniloküler radyolusent bir alan, ilgili bölgedeki dişlerde yer değiştirme ve kemikte ekspansiyon izlenirken, oklüzal radyografta ise radyolusent alan içinde yer yer radyopak alanların eşlik ettiği radyolusensi izlendi. Lezyon, gömülü bir dişle birlikte izlendiği için, çoğu AOT olgusundaki gibi ilk aşamada dentijeröz kist olarak teşhis edildi.

AOT'nin tüm varyantlarının benign biyolojik davranış göstermesi ve neredeyse tüm vakalarda bir kapsül ile çevrenmesi nedeniyle tedavisi için konservatif cerrahi enükleasyon veya küretaj önerilmektedir.²⁵ Tümörün prognozu oldukça iyidir. Rekürrens olasılığı çok az olmakla birlikte, literatürde Japonya'da üç olgu ve Çin'de 12 ve 20 yıl arayla nüks eden bir olgu bildirilmiştir.²⁵⁻²⁷ İncelediğimiz olgumuzda lezyon, enükleasyon ile tedavi

edildi ve hasta periyodik takibe alındı. Altı aylık kontrolde hasta asemptomatikti.

Sonuç olarak, AOT lezyonlarının klinik ve radyografik özellikleri spesifik değildir ve birçok odontojenik kist ile benzerlik göstermektedir. Özellikle foliküler tipi gömülü bir dişle birlikte izlenmesi, AOT'nin diğer odontojenik lezyonlara oranla daha az görülmesi nedeniyle, çoğu zaman incelediğimiz olguda olduğu gibi ilk aşamada dentijeröz kist olarak teşhis edilmektedir. Diş hekimleri maksillofasiyal bölgede normal anatomiden farklı izlenen tüm yapıları dikkatlice incelemelidir. Periyodik kontrollerle hastalar takip edilmeli ve nüks olasılığına karşı klinik ve radyografik olarak değerlendirilmelidir. Birçok lezyonun klinik ve radyografik özelliklerinin spesifik olmaması ve histopatolojik inceleme gerektirmesi nedeniyle tedavilerin, disiplinler arası yaklaşımlarla yapılması hastaların yaşam kalitesini yükseltecektir.

KAYNAKLAR

1. Takahashi K, Yoshino T, Hashimoto S. Unusually large cystic adenomatoid odontogenic tumour of the maxilla: case report. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2001;30(2):173-5.
2. Steensland HS. Epithelioma adamantinum. *J Exper Med* 1905;6(4-6):377-89.
3. James W, Forbes JG. An epithelial odontome. *Proc R Soc Med* 1909;2(Odontol Sect):166-75.
4. Harbitz F. On cystic tumors of the maxilla, and especially on adamantine cystadenomas (adamantomas). *Dent Cosmos* 1915;57:1081-93.
5. Swasdison S, Dhanuthai K, Jainkittivong A, Philipsen HP. Adenomatoid odontogenic tumors: an analysis of 67 cases in a Thai population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008;105(2):210-5.
6. Stafne EC. Epithelial tumors associated with developmental cysts of the maxilla; a report of three cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1948;1(10):887-94.
7. Mallon HL, Sabes WR, Monaco F. Ameloblastic adenomatoid tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1968;25:143.
8. Philipsen HP, Nikai H. Adenomatoid odontogenic tumor. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, eds. *Pathology and Genetics of Head and Neck Tumors*. Lyon:IARC Press, 2005. p.304-5.
9. Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumour: facts and figures. *Oral Oncol* 1999;35(2):125-31.
10. Rick GM. Adenomatoid odontogenic tumor. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2004; 16(3):333-54.
11. Philipsen HP, Reichart PA, Siar CH, Ng KH, Lau SH, Zhang X, et al. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumour: a collaborative retrospective study. *J Oral Pathol Med* 2007;36(7): 383-93.
12. Dare A, Yamaguchi A, Yoshiki S, Okano T. Limitation of panoramic radiography in diagnosing adenomatoid odontogenic tumors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;77(6): 662-8.
13. Philipsen HP, Srisuwan T, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking a periapical (radicular) cyst: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94(2):246-8.
14. Handschel JG, Depprich RA, Zimmermann AC, Braunstein S, Kübler NR. Adenomatoid odontogenic tumor of the mandible: review of the literature and report of a rare case. *Head Face Med* 2005;1:3.
15. Leon JE, Mata GM, Fregnani ER, Carlos-Bregni R, de Almeida OP, Mosqueda-Taylor A, et al. Clinicopathological and immunohistochemical study of 39 cases of Adenomatoid Odontogenic Tumour: a multicentric study. *Oral Oncol* 2005;41(8):835-42.
16. Bravo M, White D, Miles L, Cotton R. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking a dentigerous cyst. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2005;69(12):1685-8.
17. Adebayo ET, Ajike SO, Adekeye EO. A review of 318 odontogenic tumors in Kaduna, Nigeria. *J Oral Maxillofac Surg* 2005;63(6): 811-9.
18. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and maxillofacial pathology*. In: Waldrom CA, ed. *Odontogenic Cysts and Tumors*. 2nd ed. Philadelphia: W.B. Saunders, 2002, p.621-3.
19. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991;20(4):149-58.
20. Tsaknis PJ, Carpenter WM, Shade NL. Odontogenic adenomatoid tumor: report of case and review of the literature. *J Oral Surg* 1977;35(2):146-9.
21. Konouchi H, Asaumi J, Yanagi Y, Hisatomi M, Kishi K. Adenomatoid odontogenic tumor: correlation of MRI with histopathological findings. *Eur J Radiol* 2002;44(1):19-23.
22. Siar CH, Ng KH. The combined epithelial odontogenic tumour in Malaysians. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1991;29(2):106-9.

23. White SC, Pharoah MJ. Oral radiology, principles and interpretation. In: White SC, Pharoah MJ, eds. Benign tumors of the jaws. 5th ed. St. Louis; Mosby, 2004. p.431-3.
24. Chuan-Xiang Z, Yan G. Adenomatoid odontogenic tumor: a report of a rare case with recurrence. J Oral Pathol Med 2007;36(7): 440-3.
25. Philipsen HP, Reichart PA. The adenomatoid odontogenic tumour: ultrastructure of tumour cells and non-calcified amorphous masses. J Oral Pathol Med 1996;25(9):491-6.
26. Toida M, Hyodo I, Okuda T, Tatematsu N. Adenomatoid odontogenic tumor: report of two cases and survey of 126 cases in Japan. J Oral Maxillofac Surg 1990;48(4):404-8.
27. Sato D, Matsuzaka K, Yama M, Kakizawa T, Inoue T. Adenomatoid odontogenic tumor arising from the mandibular molar region: a case report and review of the literature. Bull Tokyo Dent Coll 2004;45(4):223-7.