

# ΠΕΡΙΦΕΡΙΚΟ ΑΔΑΜΑΝΤΙΝΟΒΛΑΣΤΩΜΑ. ΚΛΙΝΙΚΟΠΑΘΟΛΟΓΙΚΗ ΜΕΛΕΤΗ ΕΠΤΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΕΩΝ

Β. ΚΥΡΙΑΚΟΠΟΥΛΟΣ\*, Ε. ΧΡΥΣΟΜΑΛΗ\*\*, Ε. ΚΑΡΥΑΜΠΑ-ΣΤΥΛΟΓΙΑΝΝΗ\*\*, Σ. ΠΑΠΑΝΙΚΟΛΑΟΥ\*\*\*

## Π Ε Ρ Ι Λ Η Ψ Η

**Τ**ο περιφερικό αδαμαντινοβλάστωμα είναι ένας σπάνιος καλοήθης οδοντογενής όγκος που αναπτύσσεται στα ούλα. Κλινικά παρουσιάζεται ως ασυμπτωματικό ογκίδιο ελαστικής σύστασης με επιφάνεια λεία, ροβωτή ή και εξεληκωμένη. Οι πιο συχνοί ιστολογικοί τύποι περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος είναι ο θυλακιδώδης, ο ακανθωτός και ο δικτυωτός. Παρόλο που τα ιστολογικά χαρακτηριστικά του περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος είναι πανομοιότυπα με εκείνα που παρατηρούνται στο ενδοστικό αδαμαντινοβλάστωμα, η βιολογική συμπεριφορά αυτής της βλάβης είναι ηπιότερη χωρίς να διηθεί το υποκείμενο οστόν. Σκοπός της παρούσας εργασίας είναι η μελέτη των κλινικών και ιστοπαθολογικών χαρακτήρων επτά περιπτώσεων περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος, που προέρχονται από το αρχείο του Εργαστηρίου της Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του Πανεπιστημίου Αθηνών, μεταξύ των ετών 1970 και 2003. Το περιφερικό αδαμαντινοβλάστωμα αποτελούσε το 3,07% του συνόλου των οδοντογενών όγκων και το 10,29% των αδαμαντινοβλαστώματων που διαγνώσθηκαν κατά τη διάρκεια της αντίστοιχης χρονικής περιόδου. Η ηλικία των ασθενών κυμαινόταν από 52 μέχρι 81 έτη, με μέση ηλικία τα 64,3 έτη και ως προς το φύλο, η αναλογία ανδρών - γυναικών ήταν 1,3:1 αντίστοιχα. Αναφορικά με την εντόπιση, πέντε περιπτώσεις αφορούσαν στην άνω γνάθο και μόνο δύο στην κάτω. Ακτινογραφικά ευρήματα αναφέρονταν σε τέσσερις περιπτώσεις περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος, σε τρεις από τις οποίες είχε προκληθεί «κυπελλοειδής» απορρόφηση στη φατνιακή ακρολοφία, λόγω πίεσης από τον όγκο. Υποτροπή δεν αναφέρθηκε σε καμία των περιπτώσεων. Όσον αφορά στα ιστολογικά χαρακτηριστικά, οι συχνότεροι ιστολογικοί τύποι περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος που παρατηρήθηκαν ήταν ο θυλακιδώδης και ο ακανθωτός.

## ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Το περιφερικό αδαμαντινοβλάστωμα (ΠΑ) είναι ένας σπάνιος καλοήθης οδοντογενής όγκος, που εμφανίζει τα ιστολογικά χαρακτηριστικά του ενδοστικού αδαμαντινοβλαστώματος των γνάθων, αντίθετα όμως από αυτό, αναπτύσσεται αποκλειστικά στα ούλα<sup>1</sup>. Το ΠΑ δεν προκαλεί διήθηση του υποκείμενου οστού, σε αντίθεση με το ενδοστικό αδαμαντινοβλάστωμα, το οποίο παρουσιάζει βιολογική συμπεριφορά ενός τοπικά επιθετικού και ιδιαίτερα διηθητικού οδοντογενούς νεοπλασματος<sup>2-4</sup>.

Από το Εργαστήριο Στοματολογίας και την Κλινική Στοματικής και Γναθοπροσωπικής Χειρουργικής του Τομέα Παθολογίας και Χειρουργικής Στόματος της Οδοντιατρικής Σχολής του Πανεπιστημίου Αθηνών.

\* Μεταπτυχιακός Φοιτητής.

\*\* Επίκουρη Καθηγήτρια.

\*\*\* Καθηγήτρια Στοματολογίας.

ΟΡΟΙ ΕΥΡΕΤΗΡΙΑΣΜΟΥ: Περιφερικό αδαμαντινοβλάστωμα, Οδοντογενείς όγκοι, Αδαμαντινοβλάστωμα.

Η πρώτη αναφορά ΠΑ στη βιβλιογραφία γίνεται το 1911 από τον Kuru<sup>5</sup>. Ωστόσο, μερικοί συγγραφείς<sup>4</sup> αμφισβητούν την περίπτωση που περιγράφηκε από τον Kuru και θεωρούν ότι η βλάβη αποτελούσε αδαμαντινοβλάστωμα, το οποίο όμως μάλλον ήταν ενδοστικό και πρόβαλλε προς το βλεννογόνο των ούλων, δίνοντας ψευδώς την εντύπωση ότι επρόκειτο για περιφερικό όγκο. Η πρώτη πλήρως τεκμηριωμένη περίπτωση ΠΑ αναφέρεται στη βιβλιογραφία από τους Stanley και Krogh<sup>6</sup>.

Κλινικά το ΠΑ εμφανίζεται ως ασυμπτωματικό, ελαστικής σύστασης ογκίδιο που αυξάνεται αργά και το οποίο είναι συνήθως άμισχο, ενώ σπανιότερα μπορεί να εμφανίζεται και ως μισχωτό. Η επιφάνεια της βλάβης μπορεί να είναι λεία, ροβωτή ή ακόμα και θηλώδης, ενώ σε περιπτώσεις χρόνιου τραυματισμού είναι δυνατόν να παρουσιάζει εξεληκωση. Η χροιά του όγκου ποικίλει, από φυσιολογική ροδίνη έως και έντονα ερυ-

θρή<sup>1,4,7,8</sup>. Ακτινογραφικά ευρήματα συνήθως δεν αναφέρονται, ωστόσο, ορισμένες φορές μπορεί να παρατηρηθεί κυπελλοειδής διαύγαση του συμπαγούς οστικού πετάθου της γνάθου λόγω πίεσης από τον όγκο, φαινόμενο το οποίο στη βιβλιογραφία αναφέρεται ως "cupping" ή ως "saucerization"<sup>7,9</sup>.

Ιστολογικά το παρέγχυμα του όγκου αποτελείται από πολυάριθμες επιθηλιακές νησίδες, δοκίδες ή χορδές, σε υπόστρωμα ινώδους συνδετικού ιστού. Το ΠΑ παρουσιάζει ιστολογικές παραλλαγές παρόμοιες με εκείνες που αναφέρονται και στο ενδοστικό αδαμαντινοβλάστωμα. Ο θυλακιώδης και ο ακανθωτός είναι οι συνηθέστεροι ιστολογικοί τύποι, ενώ σπανιότερα παρατηρούνται ο δικτυωτός και ο βασικοκυτταρικός<sup>3,7</sup>. Στο θυλακιώδη τύπο ΠΑ τα κύτταρα στην περιφέρεια των επιθηλιακών νησίδων είναι υψηλά κυλινδρικά και εμφανίζουν πασσαλοειδή διάταξη και πόληση των πυρήνων. Κύτταρα παρόμοια με εκείνα του αστεροειδούς δικτύου παρατηρούνται στο κέντρο των νησίδων του θυλακιώδους τύπου, ενώ απουσιάζουν στο δικτυωτό και βασικοκυτταρικό τύπο. Κυστική εκφύλιση ή πηλακώδης μεταπλάσια των κυττάρων είναι συνήθη ευρήματα στο κέντρο των νησίδων, ενώ αθροίσματα κοκκιοκυττάρων είναι το χαρακτηριστικό του ΠΑ κοκκιοκυτταρικού τύπου<sup>3,7</sup>.

Σκοπός της παρούσας εργασίας είναι η μελέτη των κλινικών και ιστοπαθολογικών χαρακτήρων του ΠΑ, καθώς και η συζήτηση των σύγχρονων απόψεων σχετικά με την ιστογένεση αυτής της σπάνιας οδοντογενούς βλάβης.

## ΥΛΙΚΟ ΚΑΙ ΜΕΘΟΔΟΣ

Το υλικό της μελέτης αποτέλεσαν 7 περιπτώσεις ΠΑ που προέρχονταν από τα αρχεία του Εργαστηρίου της Στοματολογίας της Οδοντιατρικής Σχολής του Πανεπιστημίου Αθηνών, κατά τη χρονική περίοδο 1970-2003. Τα κλινικά στοιχεία που καταγράφηκαν λήφθηκαν από τα παραπεμπτικά των ιστολογικών εξετάσεων και αφορούσαν στο φύλο και την ηλικία των ασθενών, καθώς επίσης στην εντόπιση, την κλινική εικόνα και τα ακτινογραφικά ευρήματα των όγκων. Για την ιστοπαθολογική μελέτη αξιολογήθηκαν πολλαπλές μικροτομές, βαμμένες με αιματοξυλίνη και ηωσίνη. Τα ιστοπαθολογικά ευρήματα που αξιολογήθηκαν περιελάμβαναν τον ιστολογικό τύπο του ΠΑ, τη σχέση του όγκου με το υπερκείμενο καλυπτικό επιθήλιο και το διάμεσο υπόστρωμα.

## ΑΠΟΤΕΛΕΣΜΑΤΑ

### Κλινικά ευρήματα

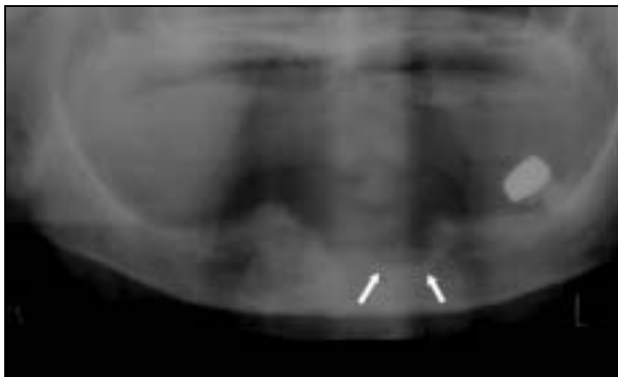
Στην παρούσα μελέτη το ΠΑ αποτελούσε το 3,07% του συνόλου των οδοντογενών όγκων και το 10,29% των αδαμαντινοβλαστωμάτων που διαγνώστηκαν κατά τη διάρκεια της αντίστοιχης χρονικής περιόδου.

Οι κλινικοί χαρακτήρες και των επτά περιπτώσεων ΠΑ της παρούσας εργασίας παρουσιάζονται στον πίνακα 1. Η ηλικία των ασθενών κυμαινόταν από 52 έως 81 έτη, με μέση ηλικία τα 64,3 έτη. Αναφορικά με το φύλο, τέσσερις περι-

**Πίνακας 1.** Κλινικοί χαρακτήρες των επτά περιπτώσεων περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος

Αριθμός περίπτωσης	Ηλικία	Φύλο	Εντόπιση	Μέγεθος	Ακτινογραφικά ευρήματα	Συμπτώματα
1	68	Θ	Άνω γομφίοι	2x1x1	-	-
2	81	A	Άνω γομφίοι	7x5x4	Σκίαση	-
3	52	A	Άνω γομφίοι	5x4x3	Διαύγαση (cupping)	-
4	53	A	Άνω γομφίοι	3x2x1	-	Συμπτωματικό
5	65	A	Άνω γομφίοι	3x2x1	-	-
6	58	Θ	Κάτω τομείς*	1,5x1x1	Διαύγαση (cupping)	-
7	67	Θ	Κάτω γομφίοι*	2x2x2	Διαύγαση (cupping)	Συμπτωματικό

\* νωδή περιοχή



Εικ. 1. Ακτινογραφική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος. Παρατηρείται κυπελλοειδής απορρόφηση της φατνιακής ακρολοφίας (cupping).

πτώσεις αφορούσαν σε άρρενα άτομα και τρεις σε θήηλα, με την αντίστοιχη αναλογία 1,3:1. Ως προς την εντόπιση, οι πέντε από τις επτά περιπτώσεις αφορούσαν στην περιοχή των άνω γομφίων, μία στην περιοχή των κάτω τομέων και μία στην κάτω γομφιακή περιοχή. Το μέγεθος των βλαβών κυμαινόταν στη μεγαλύτερή τους διάσταση από 1,5 έως και 7 εκατοστά, με μέση τιμή 3,36 εκατοστά. Σε τρεις περιπτώσεις υπήρχε επιφανειακή έλκωση, ενώ σε μία από αυτές το ογκίδιο είχε αναπτυχθεί κάτω από ολική οδοντοστοιχία. Η χροιά αναφερόταν σε τρεις περιπτώσεις

και ήταν ερυθρή-κυανή. Συμπτωματολογία πόνου αναφέρθηκε σε δύο περιπτώσεις. Στοιχεία που αφορούσαν στη διάρκεια των εξεργασιών δεν ήταν διαθέσιμα, ενώ σε κανένα όγκο δεν αναφερόταν στο παραπεμπτικό ότι αποτελούσε υποτροπή προηγούμενης βλάβης.

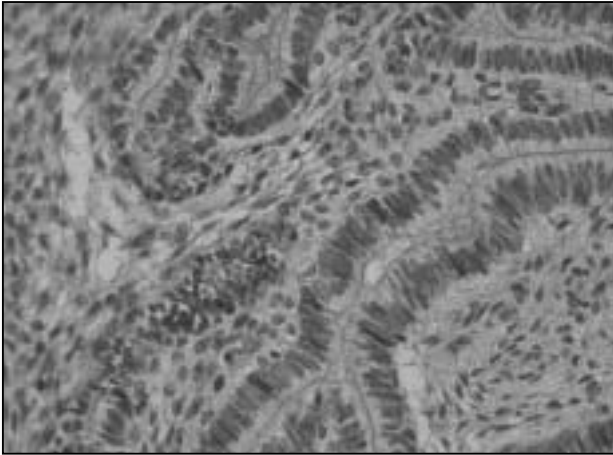
Ακτινογραφικά ευρήματα αναφέρονταν σε τέσσερις περιπτώσεις. Στις τρεις από αυτές παρατηρήθηκε η χαρακτηριστική κυπελλοειδής διαύγαση στη φατνιακή απόφυση (cupping) λόγω πίεσης από τον όγκο (Εικ. 1), ενώ στην τέταρτη, η ακτινογραφική εικόνα ήταν σκίαση λόγω παρουσίας εξωκυττάριου πωσινόφιλου υλικού με εστίες ενασβεστίωσης, το οποίο πιθανόν να αποτελούσε εκκρινικό προϊόν των παρεγχυματικών κυττάρων του όγκου.

Οι πιο συχνά αναφερόμενες πιθανές κλινικές διαγνώσεις ήταν το θήηλωμα και το πυογόνο ή αιμαγγειωματοειδές κοκκίωμα, ενώ σε μία περίπτωση η βλάβη έδινε κλινικά την εντύπωση ότι επρόκειτο για κακόηθες νεόπλησμα (ακανθοκυτταρικό καρκίνωμα).

#### Ιστοπαθολογικά ευρήματα

Τα ιστοπαθολογικά ευρήματα φαίνονται στον πίνακα 2. Οι συχνότερα εμφανιζόμενοι τύποι

Πίνακας 2. Ιστοπαθολογικά ευρήματα των επτά περιπτώσεων περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος			
Αριθμός περίπτωσης	Ιστολογικός τύπος	Σχέση με το καλυπτικό επιθήλιο	Υπόστρωμα
1	Βασικοκυτταρικός με ακανθώτη μεταπλάση	Σε συνέχεια	Χαλαρός ινώδης αγγειοβριθής συνδετικός ιστός
2	Θυλακιδώδης - δικτυωτός	Σε συνέχεια	Χαλαρός ινώδης συνδετικός ιστός
3	Θυλακιδώδης	Σε συνέχεια	Χαλαρός ινώδης συνδετικός ιστός
4	Θυλακιδώδης	Σε συνέχεια	Χαλαρός ινώδης συνδετικός ιστός
5	Ακανθωτός	Σε συνέχεια	Πυκνός ινώδης συνδετικός ιστός
6	Ακανθωτός	Δεν παρατηρείται συνέχεια	Πυκνός ινώδης συνδετικός ιστός
7	Κοκκιοκυτταρικός	Δεν παρατηρείται συνέχεια	Λίγος χαλαρός ινώδης συνδετικός ιστός

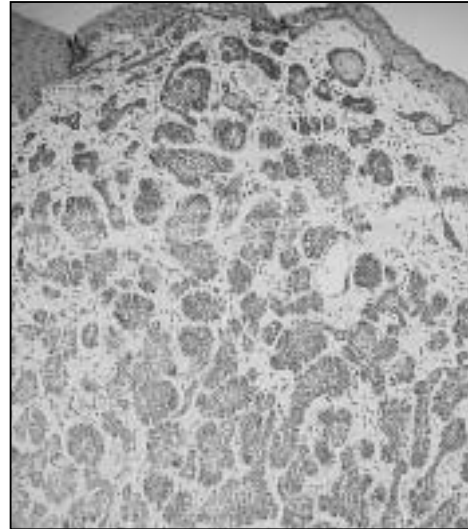


**Εικ. 2.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος θυλακιάδους τύπου. Διακρίνονται αδαμαντινοβλαστικά θυλάκια με την περιφερική στιβάδα των υψηλών κυλινδρικών κυττάρων με πασσαλοειδή διάταξη και πόλωση των πυρήνων. Κεντρικά των θυλακίων παρατηρούνται κύτταρα που μοιάζουν με κύτταρα αστεροειδούς δικτύου του οργάνου της αδαμαντίνης. (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 40).

ιστολογικών παραηλαγών ήταν ο θυλακιάδης (2) και ο ακανθωτός (2). Επίσης παρατηρήθηκαν μία περίπτωση ΠΑ βασικοκυτταρικού τύπου, μία περίπτωση κοκκιοκυτταρικού και, τέλος, μία περίπτωση που παρουσίαζε συνδυασμό ιστολογικών χαρακτήρων τόσο θυλακιάδους όσο και δικτυωτού τύπου.

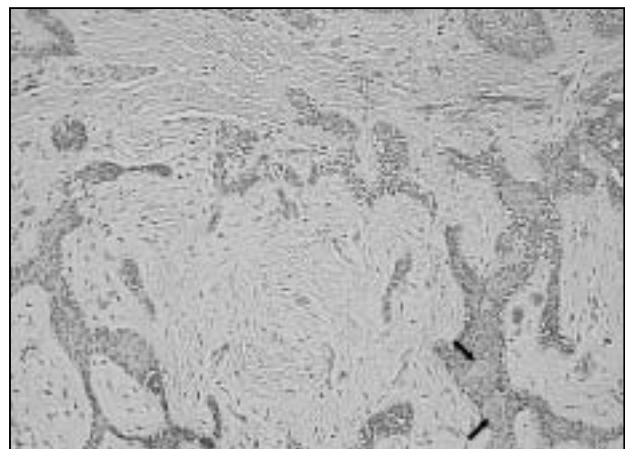
Στο θυλακιάδη τύπο παρατηρήθηκαν επιθηλιακές νησίδες (θυλάκια) μέσα σε υπόστρωμα ινώδους συνδετικού ιστού. Τα θυλάκια εμφάνιζαν περιφερικά μία στιβάδα από υψηλά κυλινδρικά κύτταρα με πασσαλοειδή διάταξη και πόλωση των πυρήνων τους προς το κέντρο του θυλακίου, ενώ στην κεντρική περιοχή κυριαρχούσαν κύτταρα παρόμοια με αυτά του αστεροειδούς δικτύου του οργάνου της αδαμαντίνης (Εικ. 2). Κυστική εκφύλιση και πηλακώδης μεταπλάσια της κεντρικής περιοχής των θυλακίων παρατηρήθηκε εστιακά.

Ο βασικοκυτταρικός τύπος αποτελείται από νησίδες, δοκίδες και χορδές βασικοειδών επιθηλιακών κυττάρων με πλούσιο βασεόφιλο κυτταρόπληγμα και μικρούς ωοειδείς πυρήνες. Στην περιφέρεια των νησίδων τα κύτταρα εμφάνιζαν πασσαλοειδή διάταξη, ενώ χαρακτηριστική ήταν η απουσία κυττάρων που μοιάζουν με αυτά του αστεροειδούς δικτύου του οργάνου της αδαμαντίνης (Εικ. 3).

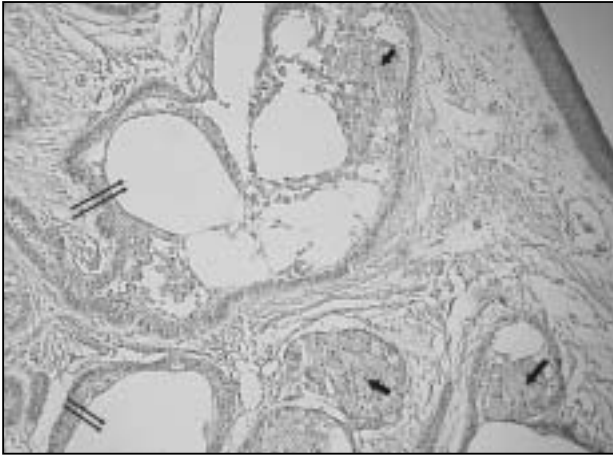


**Εικ. 3.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος βασικοκυτταρικού τύπου. Διακρίνονται νησίδες βασικοειδών κυττάρων με πασσαλοειδή διάταξη περιφερικά. (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 20).

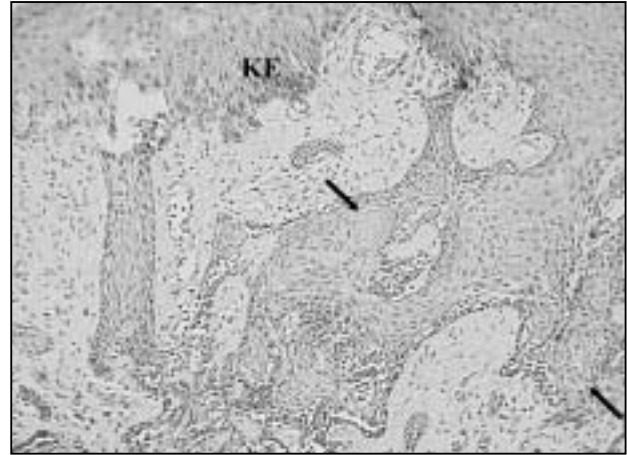
Στον ακανθωτό τύπο ιδιαίτερο χαρακτηριστικό αποτελούσε η πηλακώδης μεταπλάσια στο κέντρο των θυλακίων και ο σχηματισμός παρακερατίνης (Εικ. 4). Ο κοκκιοκυτταρικός τύπος εμφάνιζε πυκνή διήθηση από νησίδες σε λίγο υπόστρωμα αποτελούμενο από αραιό ινώδη συνδετικό ιστό. Στο κέντρο των νησίδων παρατηρούνταν μεγάλα κύτταρα με πλούσιο ηωσινοφιλο κοκκιάδες κυτταρόπληγμα και μικρούς ωοειδείς



**Εικ. 4.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος ακανθωτού τύπου. Τα αδαμαντινοβλαστικά θυλάκια εμφανίζουν κεντρικά, πηλακώδη μεταπλάσια των κυττάρων και σχηματισμό παρακερατίνης (βέλη). (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 20).



**Εικ. 5.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος κοκκιοκυτταρικού τύπου. Διακρίνονται αθροίσεις μεγάλων κυττάρων με ηωσινόφιλο κοκκιδές κυτταρόπληγμα (απλή βέηη). Κεντρικά των κυτταρικών αθροίσεων παρατηρείται κυστική εκφύλιση (διπλή βέηη). (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 20).



**Εικ. 6.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος στο οποίο οι αδαμαντινοβλαστικές νησίδες (βέηη) παρουσιάζουν συνέχεια με το καλυπτικό επιθήλιο του στόματος (ΚΕ). (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 40).

πυρήνες, καθώς και περιοχές με εκτεταμένη κυστική εκφύλιση (Εικ. 5).

Όσον αφορά στο διάμεσο υπόστρωμα του όγκου, αποτελείται από χαλαρό ινώδη συνδετικό ιστό σε πέντε περιπτώσεις, και μόνο σε δύο περιπτώσεις εμφάνιζε πυκνή διάταξη κολληγόνων δεσμίδων συνδετικού ιστού.

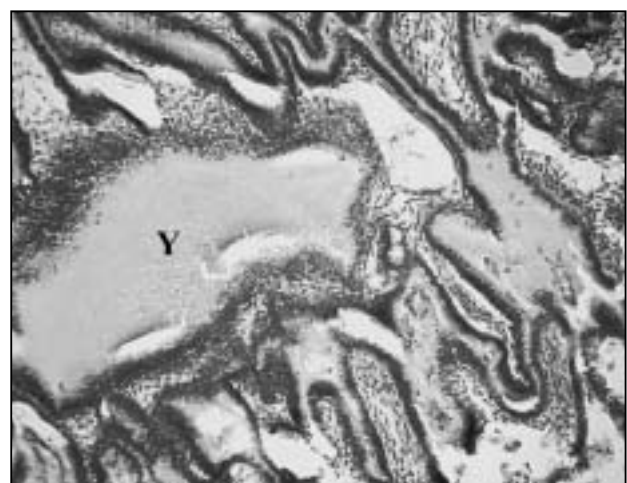
Σε πέντε περιπτώσεις ΠΑ το καλυπτικό επιθήλιο του στοματικού βλεννογόνου εμφανιζόταν να συνέχεται με τις επιθηλιακές νησίδες του όγκου, δίνοντας κατά κάποιο τρόπο την εντύπωση "εξόρμησής" τους από το υπερκείμενο επιθήλιο (Εικ. 6). Εναπόθεση εξωκυττάρου ηωσινοφιλικού υλικού, που πιθανόν αποτελούσε εκκριτικό προϊόν των επιθηλιακών κυττάρων, παρατηρήθηκε σε μία περίπτωση (Εικ. 7).

## ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Το ΠΑ είναι ένας σπάνιος οδοντογενής όγκος, η συχνότητα εμφάνισης του οποίου κυμαίνεται σε διάφορες μελέτες μεταξύ 2% και 10% του συνόλου των αδαμαντινοβλαστωμάτων<sup>4</sup>. Στην παρούσα εργασία, το ΠΑ συνιστούσε το 10,29% στο σύνολο των αδαμαντινοβλαστωμάτων και το 3,07% στο σύνολο των οδοντογενών όγκων. Το ΠΑ εντοπίζεται συχνότερα στο φατνιακό βλεννογόνο

της κάτω γνάθου, ιδιαίτερα στην περιοχή των προγομφίων, ενώ στην άνω γνάθο η οπισθογόμφια περιοχή αποτελεί τη συνθεστέρα θέση ανάπτυξης αυτού του όγκου<sup>1,4,7</sup>. Στην παρούσα εργασία η εντόπιση του ΠΑ ήταν πιο συχνή στην άνω, σε σύγκριση με την κάτω γνάθο.

Το ΠΑ εμφανίζεται σε άτομα κάθε ηλικίας και στα δύο φύλα, ωστόσο φαίνεται να παρουσιάζει



**Εικ. 7.** Ιστολογική εικόνα περιφερικού αδαμαντινοβλαστώματος θυλακιδώδους τύπου, στο υπόστρωμα του οποίου διακρίνεται εξωκυττάριο ηωσινόφιλο υλικό (Υ) σε στενή σχέση με τα παρεγχυματικά κύτταρα του όγκου. (Χρώση αιματοξυλίνης - ηωσίνης, αρχική μεγέθυνση x 20).

προτίμηση στους άρρενες μέσης ηλικίας<sup>7</sup>. Η πλειοψηφία των περιπτώσεων ΠΑ που αναφέρονται στη βιβλιογραφία αφορούσαν σε άτομα στην πέμπτη, έκτη και έβδομη δεκαετία της ζωής, ενώ εμφάνιζαν αναλογία φύλου 1,9:1 άρρενα προς θήλια<sup>4</sup>. Παρόμοια ήταν και τα αποτελέσματα της παρούσας εργασίας, που η μέση ηλικία των ασθενών ήταν 64,3 έτη και όσον αφορά στο φύλο παρατηρήθηκε μία μικρή υπεροχή στους άνδρες.

Ακτινογραφικά ευρήματα συνήθως δεν ανευρίσκονται στο ΠΑ. Ωστόσο, ορισμένες φορές παρατηρείται κυπελλοειδής απορρόφηση της φαρυγγικής ακροθωφίας, ως αποτέλεσμα πίεσης του υποκείμενου συμπαγούς οστού από το σταδιακά αυξανόμενο όγκο<sup>4,7,9</sup>. Ανάλογη ακτινογραφική εικόνα παρατηρήθηκε σε τρεις περιπτώσεις ΠΑ της παρούσας εργασίας. Ιδιαίτερο ενδιαφέρον εμφάνιζε μία τέταρτη περίπτωση, που ακτινογραφικά παρουσίαζε ακτινοσκοιερές εστίες οι οποίες, όπως έδειξε η ιστολογική μελέτη, οφείλονταν στην ύπαρξη ηωσινόφιλου υλικού στο συνδετικό υπόστρωμα του όγκου, σε στενή σχέση με τις επιθηλιακές νησίδες των παρεγχυματικών κυττάρων. Σε βαθύτερες τομές του όγκου το ηωσινόφιλο υλικό εμφάνιζε εστίες ενασβεστίωσης, γεγονός που δικαιολογεί την ύπαρξη σκιάσεων στο ακτινογράφημα.

Στη βιβλιογραφία αναφέρονται ανάλογες περιπτώσεις περιφερικών αλλήλ και ενδοοστικών αδαμαντινοβλαστωμάτων, που εμφάνιζαν ιστολογικά άμορφο εξωκυττάριο υλικό με μορφολογικούς, ιστοχημικούς και ανοσοϊστοχημικούς χαρακτήρες, πανομοιότυπους με αυτούς του υλικού που ανευρίσκεται στον αδενωματοειδή οδοντογενή όγκο<sup>10</sup>. Σύμφωνα με τους Ide και Kusama<sup>10</sup>, το νεοπλασματικό επιθήλιο του αδαμαντινοβλαστωματος, παρόλο που θεωρείται αρχέγονο, φαίνεται ότι αποκτά την ικανότητα να παράγει οργανικό υπόστρωμα αδαμαντίνης, χωρίς προηγούμενο σχηματισμό οδοντίνης από το συνδετικό ιστό. Ορισμένες φορές, αν και εξαιρετικά σπάνια, παρατηρούνται ενασβεστιώσεις, οδοντιοειδές, οστεϊνοειδές, δυσπλαστική αδαμαντίνη καθώς και κύτταρα φαντάσματα (ghost cells). Τα τελευταία είναι δυνατό να εγείρουν "αντίδραση ξένου σώματος" στο ινώδες υπόστρωμα του όγκου, ένα φαινόμενο που συνήθως παρατηρείται στην κύ-

στη του Gorlin<sup>4</sup>. Επίσης, στη βιβλιογραφία αναφέρονται περιπτώσεις ΠΑ που εμφανίζουν αθροίσεις διαυγών κυττάρων με ιστολογικούς και ιστοχημικούς χαρακτήρες όμοιους με τα διαυγή κύτταρα που ανευρίσκονται στην οδοντική ταινία, καθώς και σε άλλους οδοντογενείς όγκους<sup>4</sup>.

Αναφορικά με την ιστογένεση του ΠΑ, δύο είναι οι επικρατέστερες θεωρίες. Η μία από αυτές υποστηρίζει ότι τα κύτταρα του ΠΑ προέρχονται από επιθηλιακά υπολείμματα της οδοντικής ταινίας, που φυσιολογικά είναι δυνατό να παραμείνουν στο βλεννογόνο των φαρυγγικών αποφύσεων. Σύμφωνα με την άλλη θεωρία, τα κύτταρα του ΠΑ προέρχονται από τα κύτταρα της βασικής στιβάδας του καλυπτικού επιθηλίου, στα οποία αποδίδεται η ικανότητα να δώσουν γένεση σε οδοντογενείς όγκους<sup>1-4,11,12</sup>. Υπέρ της τελευταίας αυτής άποψης συνηγορεί και η συχνά παρατηρούμενη "συνέχεια" μεταξύ καλυπτικού και νεοπλασματικού επιθηλίου, φαινόμενο που ωστόσο είναι δυνατό να οφείλεται σε "συγχώνευση" των δύο επιθηλίων, όπως άλλωστε συμβαίνει κατά την ανατομή των δοντιών μεταξύ καλυπτικού επιθηλίου και των υπολειμμάτων του λεπτυνθέντος επιθηλίου του οργάνου της αδαμαντίνης<sup>1</sup>.

Εξάλλου, διάφορα πειραματικά μοντέλα έχουν αποδείξει ότι το στοματικό επιθήλιο των πειραματοζώων, όταν συνδυάζεται με κύτταρα οδοντικής θηλής (εξωμεσέγχυμα), παρουσιάζει ικανότητα διαφοροποίησής του προς οδοντογενές, παράγοντας δόντι, και κατά συνέπεια υπάρχει η δυνατότητα να δώσει γένεση σε οδοντογενείς βλάβες<sup>13</sup>. Σύμφωνα με αυτά τα πειραματικά μοντέλα, είναι δυνατό να εξηγηθούν και οι εξαιρετικά σπάνιες περιπτώσεις ανάπτυξης ΠΑ σε άλλες περιοχές του στόματος, εκτός του φαρυγγικού βλεννογόνου, όπως η παρειά και το έδαφος του στόματος<sup>3</sup>. Αντίθετα όμως με αυτή την άποψη, άλλοι συγγραφείς<sup>14,15</sup> υποστηρίζουν ότι μάλλον πρόκειται για διαγνωστική σύγχυση και ότι βλάβες μαλακών ιστών του στόματος που εμφανίζουν ιστοπαθολογικά χαρακτηριστικά παρόμοια με εκείνα του ΠΑ και δεν εντοπίζονται στα ούλα, είναι πολύ πιθανό να αποτελούν όγκους αδενικού επιθηλίου.

Μερικοί συγγραφείς<sup>3</sup> αναφέρουν, ότι το ΠΑ ίσως να αποτελεί οντότητα ταυτόσημη με το βασικοκυτταρικό καρκίνωμα του βλεννογόνου του

στόματος. Η άποψη αυτή όμως, αφενός μεν δεν έχει τεκμηριωθεί και αφετέρου έρχεται σε αντίθεση με την καλή βιολογική συμπεριφορά που παρουσιάζει το ΠΑ, ενώ το βασικοκυτταρικό καρκίνωμα είναι ένα διηθητικό κακόηθες νεόπλασμα.

Η κλινική διαφορική διάγνωση του ΠΑ θα πρέπει να γίνει από αντιδραστικής φύσεως όγκους των ούλων, όπως το περιφερικό οστεοποϊό ίνωμα, το πυογόνο ή αιμαγγειωματοειδές, το περιφερικό γιγαντοκυτταρικό κοκκίωμα, καθώς και από άηλους οδοντογενείς όγκους με περιφερική εντόπιση, όπως ο περιφερικός ακανθοκυτταρικός οδοντογενής όγκος, ο περιφερικός ενασβεστιούμενος επιθηλιακός οδοντογενής όγκος (Pindborg), το περιφερικό οδοντογενές ίνωμα και το επιθηλιακό οδοντογενές αμάρτωμα των ούλων<sup>1,2,4,16</sup>. Ειδικά για το τελευταίο, η διάκρισή του από το ΠΑ με ιστοπαθολογικά κριτήρια είναι εξαιρετικά δύσκολη. Σύμφωνα με μερικούς συγγραφείς<sup>17</sup>, το ΠΑ και το επιθηλιακό οδοντογενές αμάρτωμα των ούλων αποτελούν δύο ξεχωριστές οντότητες οι οποίες παρουσιάζουν παρόμοια ιστοπαθολογικά χαρακτηριστικά, ενώ διαφέρουν στη βιολογική συμπεριφορά, καθώς το ένα αποτελεί νεόπλασμα, ενώ το άλλο αμάρτωμα.

Η βιολογική συμπεριφορά του ΠΑ είναι ήπια, με τα ποσοστά υποτροπών να κυμαίνονται μεταξύ 9% και 19%. Η θεραπευτική αντιμετώπιση συνίσταται στην ολική χειρουργική αφαίρεση της βλάβης<sup>1,4</sup>. Ωστόσο, στη βιβλιογραφία αναφέρονται περιπτώσεις ΠΑ που παρουσίασαν επιθετική βιολογική συμπεριφορά ή/και κακόηθη εξαήλαση<sup>3,18,19</sup>. Μεταξύ αυτών έχει περιγραφεί περίπτωση ΠΑ, το οποίο μετά τη χειρουργική αφαίρεση, υποτροπίασε δύο φορές σε χρονικό διάστημα πέντε ετών, την πρώτη ως ακανθοκυτταρικό καρκίνωμα και τη δεύτερη ως αναπλαστικό διηθητικό καρκίνωμα<sup>18</sup>. Οι Wettan και συν.<sup>3</sup> αναφέρουν περίπτωση ΠΑ που υποτροπίασε ως επιθηλιακή δυσπλασία έντονου βαθμού.

Οι ιστοπαθολογικοί χαρακτήρες που φαίνεται να σχετίζονται με επιθετική βιολογική συμπεριφορά στο ΠΑ είναι κυρίως η μεγάλη κυτταροβρίθεια του όγκου, η έντονη μιτωτική δραστηριότητα και η ατυπία των κυττάρων<sup>19</sup>. Στην περίπτωση ενός επιθετικού ΠΑ που αναφέρεται από τους Tajima και συν.<sup>19</sup>, εκτός από τους παραπάνω μορφολογικούς χαρακτήρες διαπιστώθηκε ότι τα

κύτταρα εξέφραζαν ανοσοϊστοχημικά έντονη ανοσοαντίδραση για την κερατίνη CK19. Το εύρημα αυτό είναι αξιοσημείωτο, γιατί έντονα θετική έκφραση της κερατίνης CK19 περιγράφεται σε κακόηθη επιθηλιακά νεοπλασμάτα, όπως τα χαμηλής διαφοροποίησης καρκινώματα του στόματος και του πνεύμονα<sup>20</sup>. Επίσης, οι Califano και συν.<sup>21</sup> αναφέρουν περίπτωση περιφερικού αδενωματινοβλαστικού καρκινώματος, το οποίο εμφάνιζε διηθητική ανάπτυξη και ικανότητα μεταστάσεων. Οι Ide και Kusama<sup>22</sup> υποστηρίζουν ότι στο ΠΑ η μιτωτική δραστηριότητα των κυττάρων μπορεί να αποτελέσει έναν προγνωστικό δείκτη της βιολογικής συμπεριφοράς αυτού του όγκου. Συγκεκριμένα, προτείνουν ότι η πρόγνωση του ΠΑ πρέπει να θεωρείται αμφίβοη όταν παρατηρούνται περισσότερες από μία μιτώσεις ανά οπτικό πεδίο, ανεξάρτητα από τα άλλα ιστοπαθολογικά χαρακτηριστικά του όγκου<sup>22</sup>.

Όλες οι παραπάνω αναφορές καθιστούν σαφές, ότι παρά την κατά γενική ομολογία πολύ καλή βιολογική συμπεριφορά του ΠΑ, η μακράς διάρκειας μετεγχειρητική παρακολούθηση των ασθενών είναι απαραίτητη.

## SUMMARY

V. KYRIACOPOULOS, E. CHRYSOMALI,  
E. KARYAMBA-STYLOGIANNI, SI. PAPANICOLAOU

### PERIPHERAL AMELOBLASTOMA. CLINICOPATHOLOGICAL STUDY OF SEVEN CASES

STOMATOLOGIA 2005,62(3): 102-109

The peripheral ameloblastoma (PA) is a very rare odontogenic tumor, which occurs in the soft tissues, overlying the tooth-bearing areas of the mandible and the maxilla. Histologically the tumor is characterized by proliferating odontogenic epithelium in a dense collagenous stroma. Although PA demonstrates histopathologic features similar with those of the intraosseous infiltrating ameloblastoma, is a benign lesion, which does not invade the underlying bone. The PA occurs as an asymptomatic, slow-growing, sessile, firm and exophytic growth, the surface of

which is usually smooth, granular or even papillary. The purpose of the present study was to analyze the clinical and histopathological features of seven cases of PA derived from the archives of the laboratory of the Department of Oral Pathology of the Dental School of the Athens University, during the period 1970-2003. The PA consisted the 3.07% of the odontogenic tumors and the 10.29% of the total of ameloblastomas. The age of the patients ranged from 52 to 81 years old, with an average of 64.3 years; the male/female ratio was 1.3:1. Five cases of PA were located at the molar region in the maxillary and two cases in the mandibular gingiva respectively. Superficial bone erosion (cupping) as a result of the tumor pressure on the underlying bone was noticed in three cases. According to histologic criteria, two cases showed histopathologic features of the follicular type, two cases of the acanthomatous, while the rest of the cases included the basal cell type (1), the granular cell type (1) and combination of the follicular and plexiform type (1).

KEY WORDS: Peripheral ameloblastoma, Odontogenic tumors, Ameloblastoma.

## ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

1. ORSINI G, FIORONI M, RUBINI C, PIATTELLI A. Peripheral ameloblastoma: a report of 2 cases. *J Periodontol* 2000,71: 1174-1176
2. PATRIKIOU A, PAPANICOLAOU S, STYLOGIANNI E, SOTIRIADOU S. Peripheral ameloblastoma. Case report and review of the literature. *Int J Oral Surg* 1983,12: 51-55
3. WETTAN HL, PATTELA PA, FREEDMAN PD. Peripheral ameloblastoma: review of the literature and report of recurrence as severe dysplasia. *J Oral Maxillofac Surg* 2001,59: 811-815
4. PHILIPSEN HP, REICHART PA, NIKAI H, TAKATA T, KUDO Y. Peripheral ameloblastoma: biological profile based on 160 cases from the literature. *Oral Oncol* 2001,37: 17-27
5. KURU H. Ueber das adamantinom. *Zentralblatt für allgemeine Pathologie und Anatomie* 1911,22: 291-295
6. STANLEY HR, KROGH HW. Peripheral ameloblastoma. Report of a case. *Oral Surg* 1959,12: 760-765
7. GUROL M, BUKES EJ. Peripheral ameloblastoma. *J Periodontol* 1995,66: 1065-1068
8. ZHU EX, OKADA N, TAKAGI M. Peripheral ameloblastoma: case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 1995,53: 590-594
9. EI-HAKIM IE, EI-KHASHAB MM. Peripheral and mural ameloblastoma in the mandibular canine region of a 13-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 2000,58: 1150-1154
10. IDE F, KUSAMA K. Dysplastic enamel in peripheral ameloblastoma. *Oral Oncol* 2002,38: 214-215
11. CHAMPION AHR, MOULE AW, WILKINSON FC. An ameloblastoma of the mandible. *Br Dent J* 1951,90: 143-150
12. KLINAR KL, McMANIS JC. Soft-tissue ameloblastoma: report of a case. *Oral Surg* 1969,28: 266-272
13. TEN CATE AR. Oral Histology. Development, Structure, and Function. 5th ed. *Mosby, St. Louis, 1998: 81-82*
14. WESLEY RK, BORNINSKI ER, MINTZ S. Peripheral ameloblastoma: report of a case and review of the literature. *J Oral Surg* 1977,35: 670-672
15. MOSKOW BS, BADEN E. The peripheral ameloblastoma of the gingiva: case report and literature review. *J Periodontol* 1982,53: 736-742
16. MANOR Y, MERDINGER O, KATZ J, TAICHER S. Unusual peripheral odontogenic tumors in the differential diagnosis of gingival swellings. *J Clin Periodontol* 1999,26: 806-809
17. IDE F, KUSAMA K, TANAKA A, SAKASHITA H. Peripheral ameloblastoma is not a hamartoma but rather more of a neoplasm. *Oral Oncol* 2002,38: 318-320
18. BADEN E, DOYLE JL, PETRIELLA V. Malignant transformation of peripheral ameloblastoma. *Oral Surg* 1993,75: 214-219
19. TAJIMA Y, KAWASAKI MK, OHNO J, YI J, KUSAMA K, TANAKA H et al. Peripheral ameloblastoma with potentially malignant features: report of a case with special regard to its keratin profile. *J Oral Pathol Med* 2001,30: 494-498
20. HAMAKAWA H, BAO Y, TAKARADA M, FUKUZUMI M, TANIOKA H. Cytokeratin expression in squamous cell carcinoma of the lung and the oral cavity. An immunohistochemical study with possible clinical relevance. *Oral Surg* 1998,85: 438-443
21. CALIFANO L, MAREMONTI P, BOSCAINO A, De ROSA G, GIARDINO C. Peripheral ameloblastoma: report of a case with malignant aspect. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1996,34: 240-242
22. IDE F, KUSAMA K. Difficulty in predicting biological behavior of peripheral ameloblastoma. *Oral Oncol* 2004,40: 651-652

### ΔΙΕΥΘΥΝΣΗ ΕΠΙΚΟΙΝΩΝΙΑΣ:

Βασίλης Κυριακόπουλος  
Λ. Ποσειδώνος 6-7  
175 61 Π. Φάληρο  
ΑΘΗΝΑ