

KALSİFİYE EPİTELYAL ODONTOJENİK TÜMÖRLE BİRLİKTE GÖRÜLEN ADENOMATOİD ODONTOJENİK TÜMÖR: BİR OLGU SUNUMU

ADENOMATOİD ODONTOGENIC TUMOR ASSOCIATED WITH CALCIFYING EPITHELIAL ODONTOGENIC TUMOR: A CASE REPORT

*Fırat SELVİ¹, Bilge BİLGİÇ², Zamira KASYMOVA¹,
Misten DEMİRYONT², Ayfer KAYNAR¹.*

ÖZET

Adenomatoid Odontojenik Tümör (AOT), tüm odontojenik tümörlerin yaklaşık %3'ünü oluşturur ve tipik olarak nodüler ya da sarmal şekilli iç ya da kübik formda epitel hücrelerden oluşur. Bu hücre alanlarının içinde, kübik ya da yassı kolumnar hücrelerin oluşturduğu kanalsı yapılar ve epitel hücrelerinin aralarında, Kalsifiye Epitelyal Odontojenik Tümör'ü (CEOT) taklit eden bazı kalsifikasyon odakları bulunabilir. Ancak söz konusu hücresel özelliklerin bir arada gözlenmesi oldukça enderdir. Bu yazıda, on altı yaşında erkek hastanın mandibulasında, gömük kanin dişi ile birlikte gözlenen ve kombine olarak adlandırılabilir bir Epitelyal Odontojenik Tümör olgusu sunulacaktır. Lokal anestezi altında tümör ve içindeki gömük diş çıkarılmıştır. Histopatolojik inceleme sonucunda, kitlenin primer olarak AOT olduğu, ancak yer yer CEOT odaklarının da bulunduğu tespit edilmiştir. İyileşme dönemi sorunsuz geçmiştir. İki yıllık kontrol süresince de rezidiv görülmemiştir.

Anahtar Kelimeler: Adenomatoid odontojenik tümör, kalsifiye epitelyal odontojenik tümör, kombine odontojenik tümörler, mandibula, enükleasyon.

ABSTRACT

Adenomatoid Odontogenic Tumors (AOT) make up 3% of all odontogenic tumors. The most conspicuous feature of this tumor is nodules or whorls of spindle-shaped or cuboidal epithelial cells. Within these cellular areas, ductiform structures formed by cuboidal or low columnar cells may be identified. Between the epithelial cells, there may appear some foci of calcifications mimicing cellular features of Calcifying Epithelial Odontogenic Tumor (CEOT). However, combination of cellular features of these two different odontogenic tumors is a very rare finding. Here, a case of a so-called Combined Epithelial Odontogenic Tumor, associated with an impacted mandibular canine, is presented in a 16 year-old white male. Under local anesthesia, the tumor and the tooth were removed. The histopathological examination revealed that the tumor to be consisting primarily of AOT with some areas of CEOT. Healing was uneventful. No recurrence was detected at two years time period.

Key Words: Adenomatoid odontogenic tumor, calcifying epithelial odontogenic tumor, combined odontogenic tumors, mandible, enucleation.

¹ İstanbul Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi Ağız Diş Çene Hastalıkları ve Cerrahisi Ana Bilim Dalı.

² İstanbul Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Bilim Dalı.

GİRİŞ

Adenomatoid Odontojenik Tümör (AOT) ilk kez Stafne tarafından 1948 yılında bildirilmiştir (1). İlerleyen yıllarda, bu tümöre birçok farklı isim verilmiş, *Adenomatoid Odontojenik Tümör* olarak ise ilk kez Philipsen ve Birn adlı araştırmacılar tarafından tanımlanmıştır (2). Bu adlandırma Kramer ve Pindborg'un 1971 yılında Dünya Sağlık Örgütü (WHO) için yayımladıkları "Odontojenik Tümörlerin, Çene Kistlerinin ve İlgili Lezyonların Histolojik Sınıflandırılması" isimli eserinde basılarak günümüzdeki kullanımına kavuşmuştur (3).

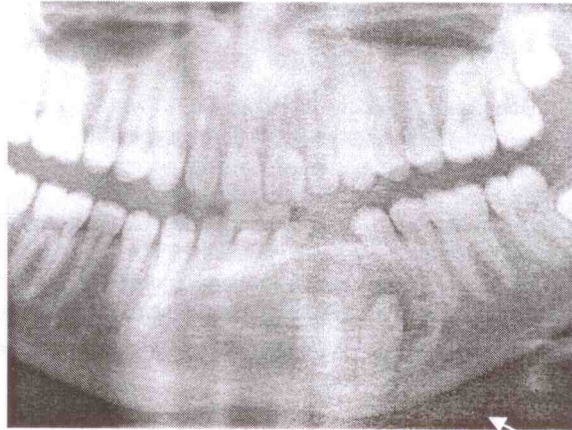
Adenomatoid Odontojenik Tümör tüm odontojenik tümörlerin yaklaşık %3'ünü oluşturan selim karakterli oluşumlardır (4). Klinik olarak çene kemiklerinde yerleşir, yavaş büyür ve asemptomatiktir. Genellikle içinde -çoğunlukla kanin olmak üzere- gömük bir diş bulunur (5). Tümör en sık yaşamın ikinci dekadında, çoğunlukla da kadınlarda görülür (4-7). Etiyolojisi tam olarak belirlenememiş olmasına karşın, dental lamina kompleksinin epitel hücrelerinden kaynaklandığı düşünülmektedir (4, 6, 7). AOT radyografide, içinde radyoopak odaklar bulunabilen sınırlı ünilocüler radyolüsent alan olarak gözlenir (4-6, 8, 9).

Histopatolojik olarak, oval-iğsi şekilli tümör hücresi sarmalları olarak görülebilir. Bu alanlar içinde, kübik ya da yassı kolumnar hücrelerin oluşturduğu kanalsı yapılar izlenebilir; bu yapılar salgı bezini çağrıştırdığından tümörün "adenomatoid" olarak adlandırılmasında rol oynamıştır. Epitel hücrelerinin arasında, Kalsifiye Epitelyal Odontojenik Tümör'ün (CEOT) hücresel oluşumlarını taklit eden kalsifikasyon odakları bulunabilir (5, 6, 9). Damm ve arkadaşları (1983 yılında), 2 AOT vakasında CEOT benzeri alanları ilk kez tanımlamış ve bunlara "*Kombine Epitelyal Odontojenik Tümör*" demiştir (10). Ancak daha sonraları aynı bulgular içeren çok az sayıda yayına rastlanmıştır (11-18). Tedavisi cerrahidir. Enükleasyonla çıkartılan bu tümörlerde rezidiv genelde görülmez (4-7, 9,19) ancak literatürde çok ender olarak tekrarladığı da bildirilmiştir (20).

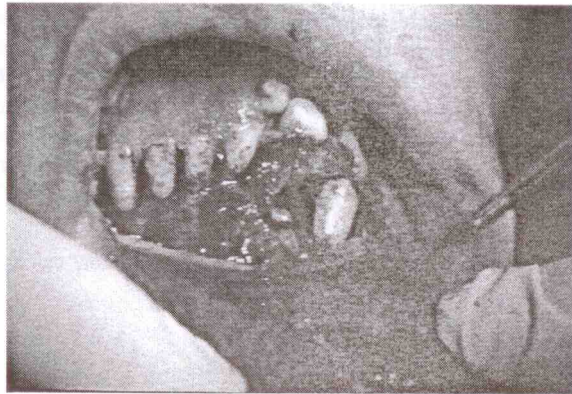
OLGU SUNUMU

16 yaşında erkek bir hasta dişlerindeki estetik sorunlar nedeniyle diş hekimine başvurmuş, yapılan rutin panoramik röntgen tetkikinde, saptanan radyolüsent alanın ileri tetkiki için İ.Ü. Diş Hekimliği Fakültesi Ağız-Diş-Çene Hastalıkları ve Cerrahisi Ana Bilim Dalı'na yönlendirilmiştir.

Alınan anamnezde hasta, sol alt lateral dişinin daha önceden çekildiğini ifade etmiştir. Klinikimizde yapılan ağız içi muayenesinde ise hastanın sol mandibüler lateral ve kanin dişlerinin eksik olduğu ve komşu dişlerin söz konusu eksik dişlerin anatomik yerine doğru eğimlendiği görülmüş, vestibüler sulkusta yapılan palpasyonda kemikte hafif bir ekspansiyona neden olan asemptomatik kitle saptanmıştır. Panoramik röntgen tetkikinde ise belirgin sınırlı radyolüsent bir alan saptanmış (Resim 1), eksik olan sol mandibüler kanin dişinin de bu alan içinde lokalize olduğu görülmüştür. Kitle, lokal anestezi altında gömük diş ile birlikte enükle edilerek çıkarılmış ve yara primer olarak kapatılmıştır (Resim 2). Makroskopik olarak fibröz bir kapsülle çevrili olan tümörün yaklaşık 2,5cmx2cmx1,5cm büyüklüğünde olduğu tespit edilmiş, palpasyonda kumlu bir his veren küçük odaklar halinde katı alanlar saptanmıştır. Post-op dönemde herhangi bir komplikasyona ve hastanın iki yıllık takibinde de klinik ve radyolojik olarak rezidive rastlanmamıştır.

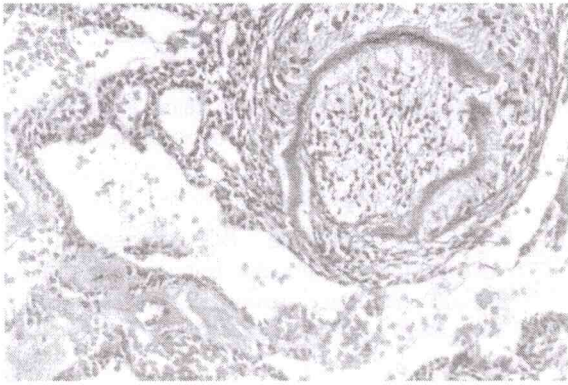


Resim 1: Hastanın preoperatif panoramik röntgeni.

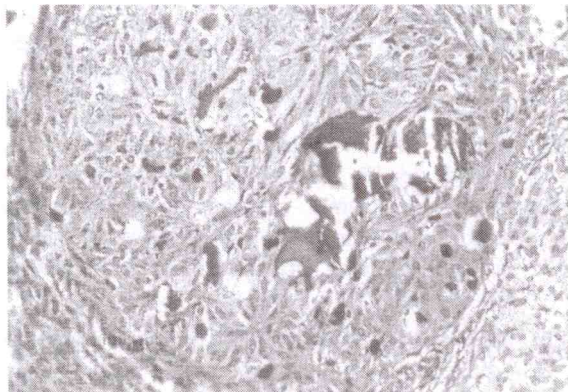


Resim 2: Lezyonun ve içindeki gömük dişin intraoperatif görünümü.

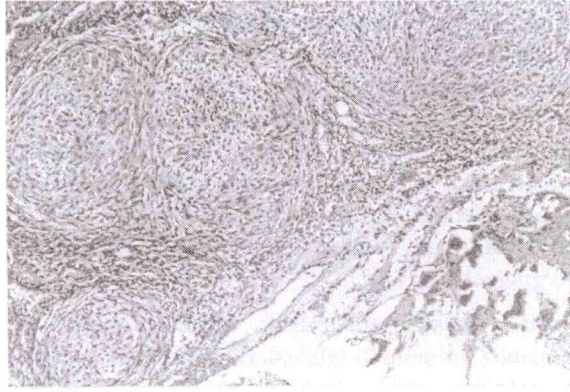
Histopatolojik incelemede, girdapsı şekilli oval-iğsi tümöral hücreler ve bu alanların içinde kübik hücrelerle döşeli adenoid yapılar izlenmiştir (Resim 3). Bu hücreler, PAS ve pansitokeratin-antijen için pozitif bulunmuştur. Hücreler arasında eosinofilik homojen amiloid-benzeri materyal gözlenmiştir. Ancak, Congo ve kristal violet reaksiyonları negatiftir. Ayrıca, merkezi bir lümeni bulunan rozet şeklinde yapılar (Resim 4) ve bu yapıları oluşturan epitel hücrelerinin içinde ve çevresinde CEOT'u düşündüren kalsifikasyon odakları görülmüştür (Resim 5). İnceleme sonucunda, tümörün primer olarak adenomatoid odontojenik tümör olduğu, içerdiği kalsifikasyon odakları ile de kalsifiye epitelyal odontojenik tümör alanları içerdiği sonucuna varılmıştır.



Resim 3: Kübik epitel hücreleri ile döşeli adenoid-kribriform yapılar ve periferde kolumnar hücrelerle çevrili nodül (sağda); arada homojen eosinofilik material (altta solda) (x 310 H & E).



Resim 4: Küçük duktus benzeri yapılar oluşturan epiteloid hücreleri; arada lümen ve kalsifikasyon alanları seçilmekte (x 310, H & E).



Resim 5: Eozinofilik sitoplazmalı poligonal hücreler ve kalsifikasyon odağı içeren solid alanlar (x 125, H & E).

TARTIŞMA

AOT genelde yaşamın ikinci dekadında, özellikle de 13-19 yaşlar arasında ortaya çıkar (4-7, 9). Bu yaş dağılımının yaşamın ikinci dekadında anlamlı derecede artması, AOT'u diğer odontojenik tümörlerden ayırmaktadır (4). Sunulan olgunun klinik ve radyografik özellikleri, literatürdeki tipik AOT bulguları ile paraleldir. Buna karşın lokalizasyon ve cinsiyet dağılımı açılarından farklılık göstermektedir. AOT'un yaşamın birinci, ikinci, ve üçüncü dekatlarında en sık lokalize olduğu bölge maksilladır (6), ancak bu olgu mandibulada görülmüştür. Kadınlarda erkek bireylere oranla daha sık görülmesine karşın (4-7, 9) bu olgu erkek hastaya aittir.

AOT'un ayırıcı tanısı ameloblastoma, dentigeröz kist, lateral periodontal kist, ve kalsifiye epitelyal odontojenik tümör (CEOT) ile yapılmaktadır. AOT'u ameloblastomadan ayıran en belirgin özellik, hamartomatöz karakteridir. AOT radyografik olarak içinde gömük bir diş bulunması nedeniyle dentigeröz kiste oldukça benzer ancak, dentigeröz kistlerde radyolusent alan dişin sadece mine sement sınırına kadar olan kuron kısmını içine alır; oysa AOT da radyolusent alan dişin tümünü içine almaktadır (21). AOT, lateral periodontal kiste özellikle lokalizasyonu bakımından, ön dişlerin köklerine yakın konumlanması ile benzerlik gösterir. Radyolojik olarak yer yer radyopak alanlar mevcut ise CEOT varlığı da düşünülmelidir.

Histopatolojik incelemede Philipsen ve Reichart'ın da belirttiği gibi, küçük büyütmede en belirgin özellik, çeşitli büyüklükte kübik ya da kolumnar epitel hücre nodüllerinin, minimum stromal bağ dokusu ile yuvalar ya da rozet şekilli

oluşumlar meydana getirmesidir (4). Epitelyal nodüllerin arasındaki boşlukları, iç şekilli ve poligonal epitelyal hücreler doldurur; bu hücreler koyu, eozinofilik sitoplazmalara ve yuvarlak hiperkromatik nükleuslara sahiptir. Hücresel alanların arasında tek sıra yassı kolumnar epitel hücreleri ile dōşeli adenoid yapılar bulunmaktadır. Bu olgu da AOT'un sözü edilen tüm klasik özelliklerini sergilemektedir (4-7).

Bir başka karakteristik hücresel model de skuamöz görünümlü polihedral, eozinofilik epitelyal hücrelerden oluşan nodüllerdir; bunlar genellikle düzgün sınırlı sitoplazma sınırları ve belirgin hücreler arası bağlantılara sahiptir. Bu adacıklar, amorf amiloid benzeri madde birikimleri ve yuvarlak kalsifiye madde içerebilir. Bu olgudaki en ilgi çekici özellik, CEOT'un hücresel yapılarına benzer bu tip kalsifikasyon odakları içermesidir. Tablo 1'de günümüze dek yayınlanmış AOT içinde bir ya da daha fazla sayıda kalsifikasyon nodülleri bulunan benzer kombine olgular sunulmuştur. Bazı otoriteler tarafından "Kombine AOT-CEOT" olarak tanımlanan CEOT benzeri alanlar, AOT'un biyolojik davranışını ve büyüme potansiyelini etkilememektedir. Ayrıca, CEOT benzeri alanların AOT'a baskın olduğu bir olgu görülmemiştir (4). Bu yüzden, AOT içerisinde CEOT benzeri alanların varlığı, AOT'un normal histolojik değişkenlerinden biri olarak değerlendirilebilir düşüncesindedir.

Tablo 1: AOT ve CEOT'un kombine olarak bulunduğu olgular

Yazarlar	Olgu Sayısı
Damm ve ark., 1983	2
Bingham & Adrian, 1986	1
Takeda & Kudo, 1986	1
Okada ve ark., 1987	1
Siar & NG, 1987	1
Siar & NG, 1991	5
Montes Ledesma ve ark., 1994	12
Sunulan olgu, 2004	1
TOPLAM	24

KAYNAKLAR

1. Stafne ER. Epithelial tumor associated with a developmental cyst of the maxilla. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1948; **1**, 887-94.
2. Philipsen HP, Birn H. The adenomatoid odontogenic tumour, ameloblastic adenomatoid

tumour or adeno-ameloblastoma. *Acta Pathol Microbiol Scand* 1969; **75**: 375-98.

3. Kramer IRH, Pindborg JJ. WHO International Histological Classification of Tumours. No. 5. Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts, and allied lesions. Springer Verlag, Berlin 1971.
4. Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumour: facts and figures. *Oral Oncol* 1999; **35**: 125-31.
5. Montes Ledesma C, Mosqueda Taylor A, Romero de León E, de la Piedra Garza M, Goldberg Jaukin P, Portilla Robertson J. Adenomatoid odontogenic tumor with features of calcifying epithelial odontogenic tumor (the so-called combined epithelial odontogenic tumor). Clinico-pathological report of twelve cases. *Oral Oncol-Eur J Cancer* 1993; **29** (B): 221-4.
6. Philipsen HP, Reichert PA, Zhang KJ, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991; **20**: 149-58.
7. Olgaç V, Köseoğlu BG, Kasapoğlu C. Adenomatoid odontogenic tumor: a report of an unusual maxillary lesion. *Quintessence Int* 2003; **34** (9): 686-8.
8. 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**: 662-8.
9. Vitkus R, Meltzer JA. Repair of a defect following the removal of a maxillary adenomatoid odontogenic tumor using guided tissue regeneration. A case report. *J Periodontol* 1996; **67**: 46-50.
10. Damm DD, White DK, Drummond JF, Pointdexter JB, Henry BB. Combined epithelial odontogenic tumor: adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1983; **55**: 487-96.
11. Bingham RA, Adrian JC. Combined epithelial odontogenic tumor-adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg* 1986; **44**: 574-77.
12. Takeda Y, Kudo K. Adenomatoid odontogenic tumor associated with calcifying epithelial

- odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1986; **15** (4): 469-73.
13. Siar CH, Ng KH. Combined calcifying epithelial odontogenic tumor and adenomatoid odontogenic tumor. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1987; **16**: 214-6.
 14. Okada Y, Mochizuki K, Sigimura M, Noda Y, Mori M. Odontogenic tumor with combined characteristics of adenomatoid odontogenic and calcifying epithelial odontogenic tumors. *Path Res Pract* 1987; **182**: 647-57.
 15. Siar CH, Ng KH. The combined epithelial odontogenic tumor in Malaysians. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1991; **29**: 106-9.
 16. Hicks MJ, Flaitz CM, Batsakis JG. Adenomatoid and calcifying epithelial odontogenic tumors. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 1993; **102** (2): 159-61.
 17. Junquera Gutierrez LM, Albertos Castro JM, Floriano Alvarez P, Lopez Arranz JS. Combined epithelial odontogenic tumor. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1994; **95** (1): 27-9.
 18. Miyake M, Nagahata S, Nishihara J, Ohbayashi Y. Combined adenomatoid odontogenic tumor and calcifying epithelial odontogenic tumor: report of case and ultrastructural study. *J Oral Maxillofac Surg* 1996; **54**: 788-93.
 19. Mendis BRRN, MacDonald DG. Adenomatoid odontogenic tumor. A survey of 21 cases from Sri Lanka. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1990; **19**: 141-3.
 20. 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**: 404-8.
 21. Pampu AA, Dolanmaz D, Ozturk A, Gunhan O. Adenomatoid odontogenic tumor: a case report. *J. Turkish Oral and Maxillofac. Surg* 2004; **8**:62-6.

Yazışma Adresi:**Fırat SELVİ**

İstanbul Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi
Ağız Diş Çene Hastalıkları ve Cerrahisi Ana Bilim Dalı
P.K: 34390, ÇAPA-İSTANBUL.
Telefon: 0532 771 06 41
Fax: 0212-531 22 30
E-posta: firatselvi@gmail.com