

To cite this article:

Wachowiak Paweł, Olszewski Konrad, Kudrymska Aleksandra, Zwierzyńska Lidia: Ameloblastic fibroodontoma – opis przypadku z przeglądem piśmiennictwa. *Ameloblastic fibroodontoma – a case report with literature review*. *Nowa Stomatol* 2023;28(4):119-124. DOI: 10.25121/NS.2023.28.4.119

To link to this article:

<https://doi.org/10.25121/NS.2023.28.4.119>

*PAWEŁ WACHOWIAK¹, KONRAD OLSZEWSKI¹, ALEKSANDRA KUDRYMSKA², LIDIA ZWIERZYŃSKA³

Ameloblastic fibroodontoma – opis przypadku z przeglądem piśmiennictwa

Ameloblastic fibroodontoma – a case report with literature review

¹Oddział Kliniczny Chirurgii Szczękowo-Twarzowej, Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 1 im. prof. Tadeusza Sokołowskiego, Pomorski Uniwersytet Medyczny w Szczecinie
Kierownik Oddziału: dr. n. med. Robert Kowalczyk

²Zakład Patomorfologii, Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 1 im. prof. Tadeusza Sokołowskiego, Pomorski Uniwersytet Medyczny w Szczecinie

Kierownik Zakładu: prof. dr hab. n. med. Elżbieta Uraśńska

³SochaClinic Centrum Stomatologiczne i Szkoleniowe, Szczecin
Kierownik Centrum: dr. n. med. Jolanta Nowakowska-Socha

SŁOWA KLUCZOWE

ameloblastic fibroodontoma, *complex odontoma*, guz zębopochodny, AFO, pacjent pediatryczny

KEYWORDS

ameloblastic fibroodontoma, complex odontoma, odontogenic tumor, AFO, pediatric patient

STRESZCZENIE

Zmiany wchodzące w skład guzów zębopochodnych są grupą niezwykle heterogenną, często o podobnym obrazie klinicznym, a nawet histopatologicznym. Diagnostyka na poziomie mikroskopowym jest bardzo trudna i odgrywa główną rolę w postawieniu ostatecznego rozpoznania, co w konsekwencji decyduje o postępowaniu leczniczym.

Przedstawiamy przypadek niespełna czteroletniego chłopca, który zgłosił się do Kliniki Chirurgii Szczękowo-Twarzowej SPSK-1 w Szczecinie w 2019 roku z powodu wcześniejszego urazu twarzy. Opiekunów zaniepokoiła asymetria policzków. W badaniu klinicznym stwierdzono rozdęcie szczęki prawej oraz patologiczną ruchomość zęba 55. W badaniu tomografii komputerowej z kontrastem stwierdzono rozdęcie kości szczęki prawej, z obecnością struktur cieniujących wewnątrz zmiany. Zmiana została operacyjnie usunięta w całości. Badanie kliniczne i histopatologiczne wskazało na zmianę o typie *ameloblastic fibroodontoma*. Cechy histologiczne guza jednoznacznie nie pozwalały na klasyfikację guza jako *ameloblastic fibroma* ani *complex odontoma*. W trzyletnim okresie obserwacji nie stwierdzono wznowy.

Opisywany przypadek wskazuje na fakt, że mimo braku uwzględnienia AFO w aktualnej klasyfikacji WHO, nadal w praktyce klinicznej możemy spotkać zmiany o tym charakterze.

SUMMARY

Lesions included in odontogenic tumor group are an extremely heterogeneous group, associating similar clinical and histopathological picture. Microscopic diagnostics provides major contribution to the final diagnosis. Its output determines the therapeutic procedure.

We present the case of an almost four-year-old boy who was referred to the Maxillofacial Surgery Department SPSK-1 in Szczecin in 2019, due to earlier facial injury. The care-

givers were concerned about the asymmetry of the cheeks. In a clinical examination distention of the right maxilla and pathological mobility of tooth 55 were found. During the examination, computed tomography with contrast revealed distention of the right jaw bone, with the presence of shading structures inside the lesion. Whole lesion was removed during surgery. Clinical and histopathological examination indicated an ameloblastic fibroodontoma. The histological features of the tumor did not allow clearly for tumor classification as ameloblastic fibroma or complex odontoma. During the three-year follow-up period, no recurrence symptoms were found.

The described case indicates that despite the fact that AFO is not included in the current WHO classification, we can still encounter changes of this nature in clinical practice.

WSTĘP

Zgodnie z trzecią edycją klasyfikacji WHO guzów głowy i szyi z 2005 roku guz zębopochodny AFO – *ameloblastic fibroodontoma* – zaliczany był do guzów zębopochodnych łagodnych o pochodzeniu nabłonkowym i mezenchymalnym. Posiadał histologiczne cechy *ameloblastic fibroma* w połączeniu z obecnością szkliwa i zębiny. Literatura medyczna określała go jako zmianę wolno rosnącą, niebolesną, z tendencją do rozprężającego wzrostu, bez naciekania okolicznych tkanek, niewykazującą skłonności do nawrotów. Szczyt występowania zmiany opisywany był na 1. i 2. dekadę życia (1). Czwartą edycją klasyfikacji WHO z 2017 roku (2) oraz piąta (3) z 2022 roku nie uwzględniają AFO, wskazując brak wystarczających dowodów na istnienie jej jako odrębnej jednostki chorobowej. Według powyższych aktualizacji guzy o charakterze *ameloblastic fibroma*, które zawierają tkanki twarde zęba, różnicują się w kierunku zębniaka złożonego – *complex odontoma*.

OPIS PRZYPADKU

Do Kliniki Chirurgii Szczękowo-Twarzowej w sierpniu 2019 roku zgłosił się chłopiec w wieku 3 lat 10 miesięcy, po urazie twarzy, do którego doszło 2 dni wcześniej, w wyniku upadku z wysokości własnego ciała. Opiekunkę pacjenta zaniepokoiła asymetria policzków. Dziecko według wywiadu wcześniej nie było leczone stomatologicznie. Wywiad w kierunku wcześniejszych guzów zębopochodnych u chłopca i jego rodziny – ujemny. W badaniu klinicznym zaobserwowano u pacjenta zewnątrzustnie asymetrię twarzy pod postacią wygórowania prawego policzka (ryc. 1), natomiast wewnątrzustnie patologiczną ruchomość zęba 55, rozdęcie kości wyrostka zębodołowego szczęki prawej (ryc. 2), wyczuwalne palpacyjnie od strony sklepienia przedsionka jamy ustnej i podniebienia po stronie prawej.

W dniu zgłoszenia się pacjenta do tutejszej kliniki wykonano tomografię komputerową twarzoczaszki z kontrastem (CECT), w której potwierdzono obecność wstępnie rozpoznanego klinicznie guza prawej szczęki (ryc. 3). W badaniu obrazowym uwidoczniono rozdęcie kości szczęki prawej z obecnością struktur cieniujących wewnątrz zmiany oraz zawiązkiem zęba stałego.

Wykonano biopsję wycinkową. Preparat umieszczono w 10% roztworze formaliny. W badaniu mikroskopowym

stwierdzono guz złożony z trzech komponentów: mezenchymalnego przypominającego strukturę brodawki zębowej, nabłonkowego o morfologii wczesnego stadium narządu szkliwotwórczego oraz twardych elementów zębiny i szkliwa. Komórki bez cech polimorfizmu oraz figur podziału.

W badaniu immunohistochemicznym nie wykazano ekspresji BRAF600V (ryc. 4 i 5).

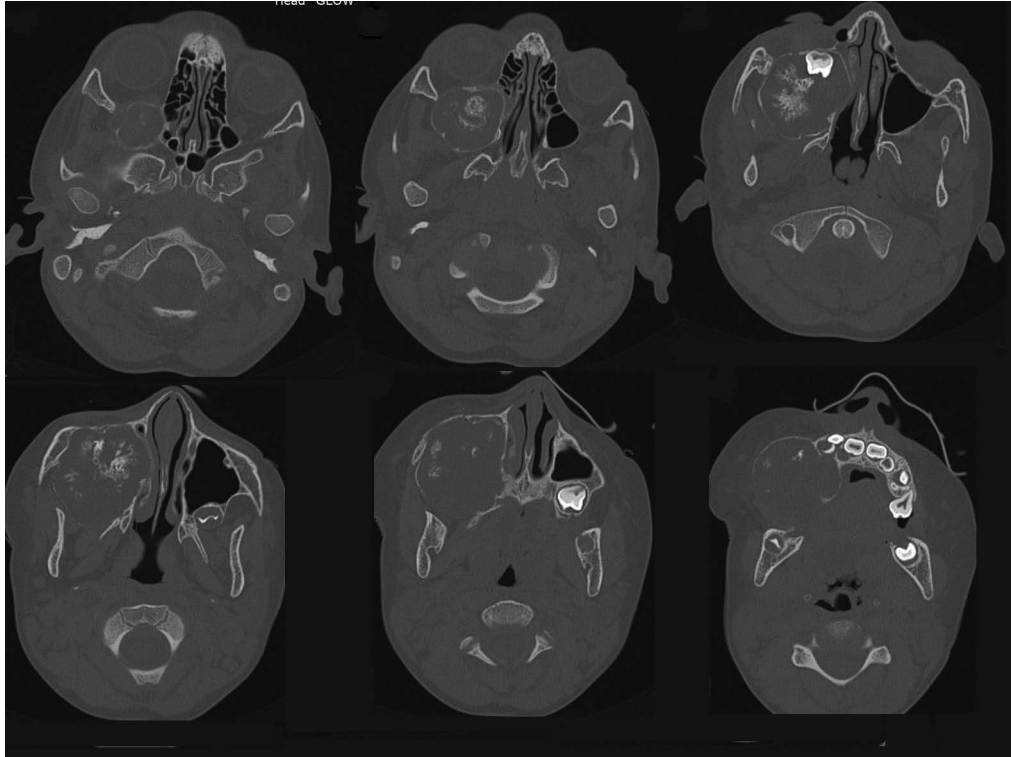
Cechy morfologiczne guza odpowiadały rozpoznaniu szkliwiakowego włókniakozębiaka (*ameloblastic fibroodontoma*). Po analizie histopatologicznej wycinków postawiono



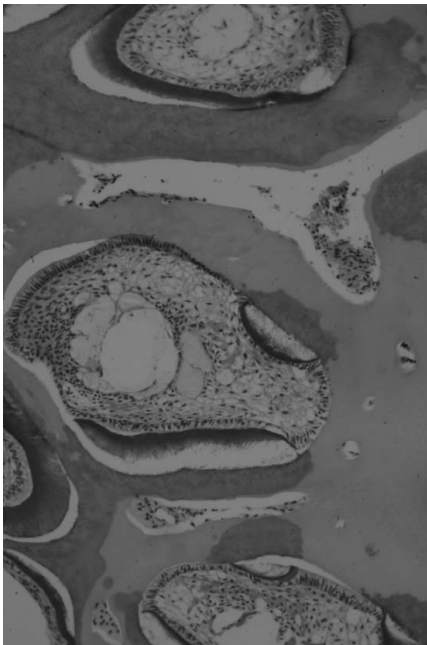
Ryc. 1. Obraz zewnątrzustny przedoperacyjny



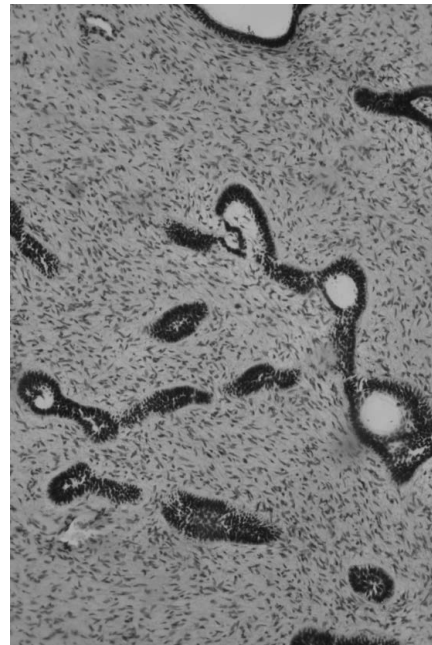
Ryc. 2. Obraz przedoperacyjny, stan po pobraniu wycinka, przed leczeniem radykalnym



Ryc. 3. CECT przedzabiegowe



Ryc. 4. Preparat histologiczny – wycinek



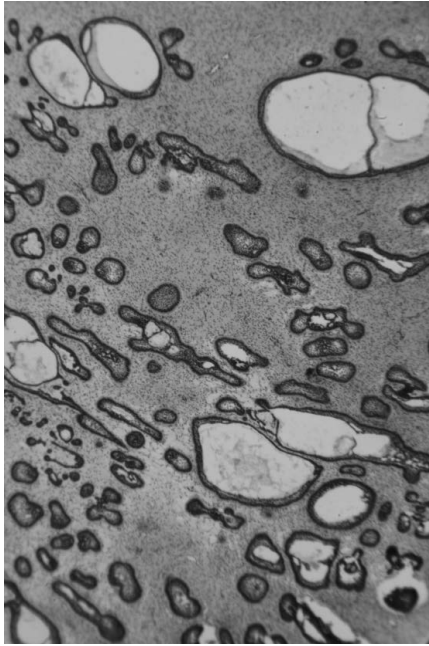
Ryc. 5. Preparat histologiczny – wycinek 2

wstępne rozpoznanie AFO – *ameloblastic fibroodontoma*. Analiza histopatologiczna wykluczyła możliwość jednoznacznej klasyfikacji zmiany jako *ameloblastic fibroma* lub *complex odontoma*.

Po uzyskaniu wyniku powyższego badania wykonano zabieg operacyjny doszczętnego wycięcia zmiany z pozostawieniem klinicznie niezmiennych ścian kostnych

wokół zmiany wraz z usunięciem zęba 55. W badaniu histopatologicznym pooperacyjnym stwierdzono utkanie zmiany jak w pierwszym wycinku (ryc. 6).

Pacjent pozostaje pod kontrolą onkologa dziecięcego. W badaniach kontrolnych rezonansu magnetycznego z kontrastem wykonanym dwukrotnie w okresie 3 lat od leczenia nie stwierdzono klinicznych ani radiologicznych cech



Ryc. 6. Preparat histologiczny – pooperacyjny



Ryc. 7. Kontrola po roku od leczenia

nawrotu (ryc. 7). Metodę rezonansu magnetycznego zamiast tomografii komputerowej zastosowano w celu ograniczenia dawki promieniowania rentgenowskiego ze względu na wiek pacjenta. Ponadto wykorzystano właściwości tego badania w celu lepszego rozróżnienia zmian pooperacyjnych od ewentualnej wznowy.

DYSKUSJA

AFO był klasyfikowany jako nowotwór z bardzo niskim ryzykiem wznowy, ale z udokumentowanym przypadkiem transformacji w *ameloblastic fibrosarcoma* (4), natomiast zębniak złożony jest zmianą hamartomatyczną, której bardzo rzadka nawrotowość wynika zwykle z niedoszczędności zabiegu (1).

Biorąc pod uwagę powyższe, podstawową różnicą w zależności od rozpoznania jest konieczność objęcia pacjenta częstszą i bardziej wnikliwą kontrolą przy rozpoznaniu AFO. W przypadku opisywanym w tym artykule dotyczy to badań dziecka z koniecznością hospitalizacji w celu wykonania badania obrazowego w znieczuleniu ogólnym. Przy doszczętnym usunięciu zębniaka złożonego inwazyjne metody obrazowania mogłyby być konieczne jedynie w leczeniu ortodontycznym lub podczas planowania leczenia chirurgicznego odtwórczego. W pozostałych przypadkach możliwa byłaby obserwacja pacjenta z pominięciem inwazyjnych badań obrazowych w celach onkologicznych, a kontrole radiologiczne można by ograniczyć do rutynowych badań stomatologicznych (np. OPG).

W różnicowaniu należy ująć inne guzy, mogące radiologicznie zawierać elementy uwapnione, m.in. AOT (ang. *adenomatoid odontogenic tumour* – pseudogruzołowy guz zębopochodny), gdzie przebieg również jest łagodny, a nawrotowość mała, CEOT (ang. *calcifying epithelial odontogenic tumour* – wapniejący nabłonkowy guz zębopochodny), który w przypadku dużych rozmiarów wymaga bardziej radykalnego postępowania ze względu na częstsze wznowy, COC (ang. *calcifying odontogenic cyst* – wapniejąca torbiel zębopochodna), który wznowia się rzadziej niż poprzedni, ale w przypadku dużych zmian również wymaga bardziej radykalnego podejścia, DGCT (ang. *dentinogenic ghost cell tumour* – zębiniopochodny guz zawierający komórki cienie), który cechuje się dużym ryzykiem wznowy nawet po radykalnym usunięciu i wykazuje ryzyko zezłośliwienia (1).

Zgodnie z piątą edycją WHO „niejasne jest, czy włókniakozębniak szkliwiakowy (*ameloblastic fibroodontoma*) i włókniakozębiniak szkliwiakowy (*ameloblastic fibrodentinoma*) są niezależnymi jednostkami, pośrednimi zmianami ostatecznie prowadzącymi do rozwoju zębniaka, czy są mieszkanką rozwijających się zębniaków i włókniaków szkliwiakowych (*ameloblastic fibroma*)” (3).

W 4. edycji WHO guzów głowy i szyi z 2017 roku AFO został usunięty jako oddzielna jednostka chorobowa, mimo to w literaturze dotyczącej patologii głowy i szyi wydane po 2017 roku nadal jest opisywany jako typ histologiczny w grupie łagodnych zębopochodnych nowotworów nabłonkowo-podścieliskowych. Najnowsza, 5. edycja WHO guzów głowy i szyi z 2022 roku nadal nie rozstrzyga jednoznacznie, jak klasyfikować AFO – czy jako wczesne stadium zębniaka złożonego, czy jako wczesne stadium włókniaka szkliwiakowego. Część AFO wykazuje sposób wzrostu, który klasyfikuje je jako prawdziwe nowotwory w przeciwieństwie do zębniaków, które mają charakter zmian hamartomatycznych. W związku z tym w opisach patomorfologicznych nadal jest stosowane rozpoznanie szkliwiakowego włókniakozębniaka (*ameloblastic fibroodontoma*) celem ustalenia dalszego postępowania terapeutycznego (5, 6).

Analiza piśmiennictwa pozwala na potwierdzenie niskiej nawrotowości zmian o charakterze AFO, zarówno po leczeniu oszczędzającym, jak i radykalnym, co potwierdzają

wieloletnie obserwacje autorów opisujących podobne przypadki. Należy zwrócić jednak uwagę, że w wielu z nich zmiany w momencie pierwszego kontaktu z pacjentem wykazują niepokojący onkologicznie charakter radiologiczny oraz kliniczny. Opisywany przez nas przypadek w naszej ocenie również wydaje się w pierwszym badaniu podejrzany onkologicznie, a komplet wykonanych badań oraz pooperacyjna obserwacja wykazały łagodny charakter zmiany. Poniżej przedstawiamy kilka przypadków z piśmiennictwa, w których opisano potwierdzone histopatologicznie przypadki *ameloblastic fibroodontoma*.

Tolentino i wsp. (7) w opisie przypadku przedstawiają zmianę u 11-letniej dziewczynki klinicznie niebolesną, bez obrzęku tkanek, radiologicznie widoczną jako dobrze odgraniczoną nieregularną masę, 3-centymetrowej średnicy w okolicy lewego trzonu i gałęzi żuchwy. W obrębie obrazu tomografii komputerowej widoczna dobrze ograniczona zmiana zawierająca uwapnione masy. Zastosowane zostało leczenie chirurgiczne – wyłuszczenie oraz kiretaż obwodowy łoży. Autor podaje brak cech nawrotu w badaniach kontrolnych.

Kumar i wsp. (8) opisują zmianę u 10-letniej dziewczynki w bocznym odcinku prawej szczęki, przypadkowo uwidoczną radiologicznie, opisywaną jako cieniująca masa z przejaśnieniem na obwodzie obejmująca prawie cały guz szczęki. Zastosowane zostało leczenie chirurgiczne – wyłuszczenie zmiany. W pooperacyjnej kontroli radiologicznej po 6 miesiącach nie było cech nawrotu.

Ribeiro i wsp. (9) opisują przypadek u 17-letniego chłopca jako niebolesne wygórowanie prawej strony żuchwy z dyskretną asymetrią twarzy. Przedstawiają twardą, niebolesną zmianę pokrytą niezmienną błoną śluzową. W badaniu pantomograficznym zmianę określają jako nieregularnie, ale dobrze odgraniczoną, z wewnętrznymi asymetrycznymi przejaśnieniami. Zasięg zmiany obejmuje obszar od okolicy zębów przedtrzonowych strony prawej do okolicy prawego kąta żuchwy. Zastosowane zostało leczenie chirurgiczne – resekcja zmiany z rekonstrukcją przeszczepem kości z talerza

kości biodrowej. Przez 8 lat w badaniach kontrolnych nie wykazano cech wznowy.

Sanjai i wsp. (10) opisują przypadek masywnego, owrzodzonego guza lewej gałęzi i kąta żuchwy u 19-letniego mężczyzny leczonego metodą hemimandibulektomii z selektywnym usunięciem I grupy węzłowej po stronie zmiany. W badaniach kontrolnych nie stwierdzono cech wznowy.

Polskie piśmiennictwo wydaje się dość ubogie w zakresie opisywanych zmian. Pojedynczy znaleziony przez autorów artykuł dotyczył niepotwierdzonego histologicznie przypadku (11).

Najbardziej aktualny na dzień stworzenia tej pracy opis przypadku autorstwa Goel i wsp. (12) prezentuje przypadek 18-letniego mężczyzny skierowanego do leczenia z powodu niebolesnej, powoli powiększającej się od około roku zmiany powodującej asymetrię twarzy. W badaniu radiologicznym CBCT wykazano jednokomorowe rozrzedzenie kości trzonu, kąta i gałęzi żuchwy, z przemieszczonym w obrębie zmiany III zębem trzonowym. Po usunięciu zmiany poprzez jej wyłyżeczkowanie oraz po badaniu histopatologicznym postawiono rozpoznanie AFO (*ameloblastic fibroodontoma*). W dwuletnim okresie obserwacji nie stwierdzono objawów wznowy.

WNIOSKI

Każdy z wyżej opisywanych przypadków podaje obecność tkanek twardych, radiologicznie cieniujących w obrębie zmiany. Obrazy kliniczne różnią się od siebie znacząco. Badanie histopatologiczne we wszystkich powyższych przypadkach daje wynik AFO. Zgodnie z aktualną klasyfikacją WHO, opisywany w tym artykule oraz powyższe przypadki pozostałych autorów należałoby określić jako wczesne postaci zębiaków złożonych, jednak przypadek własny oraz analiza części wyżej wymienionych przypadków w ocenie autora wymagają wzmożonej czujności onkologicznej.

Pomimo wykluczenia jednostki chorobowej z klasyfikacji WHO możliwe jest nadal spotkanie zmian o takim charakterze w praktyce klinicznej.

KONFLIKT INTERESÓW

Brak konfliktu interesów

ADRES DO KORESPONDENCJI:

*Paweł Wachowiak
Oddział Kliniczny Chirurgii
Szczękowo-Twarzowej
Uniwersytecki Szpital Kliniczny Nr 1
im. prof. Tadeusza Sokołowskiego
Pomorski Uniwersytet Medyczny
w Szczecinie
ul. Unii Lubelskiej 1, 71-252 Szczecin
tel.: +48 733 881 938
wachowiakpawel91@gmail.com

PIŚMIENNICTWO

1. Kaczmarzyk T, Stypułkowska J, Tomaszewska R, Czopek J: Nowotwory zębopochodne i guzy nowotworopodobne kości szczękowych. Podręcznik dla studentów i lekarzy. Wydawnictwo Kwintesencja, Warszawa 2009: 97-114.
2. Kaczmarzyk T, Stypułkowska J, Tomaszewska R: Update of the WHO classification of odontogenic and maxillofacial bone tumours. J Stomatol 2017; 70(5): 484-506.
3. WHO Classification of Tumours Editorial Board. Head and neck tumours. Lyon (France): International Agency for Research on Cancer; forthcoming. (WHO classification of tumours series, 5th ed.; vol. 9. <https://publications.iarc.fr>.
4. Howell RM, Burkes EJ Jr: Malignant transformation of ameloblastic fibro-odontoma to ameloblastic fibrosarcoma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1977; 43(3): 391-401.
5. Gnepp DR, Bishop JA: Gnepp's Diagnostic Surgical Pathology of the Head and Neck. Elsevier 2021.
6. Campisi P, Forte V, Ngan B-Y, Taylor G: Pediatric Head and Neck Textbook Pathology, Surgery and Imaging. Springer Nature, Switzerland A&G 2021.
7. de Souza Tolentino E, Centurion BS, Lima MC et al.: Ameloblastic fibro-odontoma: a diagnostic challenge. Int J Dent 2010; 2010: 104630.

nadesłano:

27.11.2023

zaakceptowano do druku:

18.12.2023

8. Kumar SLK, Manuel S, Khalam SA et al.: Ameloblastic fibro-odontoma. *Int J Surg Case Rep* 2014; 5(12): 1142-1144.
9. Ribeiro CM, Santos TT, de Castro SR et al.: Extensive Mandibular Ameloblastic Fibro-Odontoma. *J Craniofac Surg* 2016; 27(6): e563-565.
10. Sanjai K, Reddy LP, Roopavathi K, Muniswamy HK: Ameloblastic Fibro-Odontoma: A Journey of Progression? *J Oral Maxillofac Pathol* 2022; 26(Suppl. 1): S40-S45.
11. Karolewski G: Ameloblastic Fibro-Odontoma. A case report in a 12-year-old child. *Mag Stomatol* 2020; 6: 40-42.
12. Goel M, Qamar A, Daftary M et al.: Ameloblastic fibro-odontoma in the posterior mandible: A case report. *Med Int (Lond)* 2023; 3(6): 63.