

Ameloblastom i overkjeven – veien til rett diagnose

En kasuistikk

Kristine Eidal Tanem, Mats Døving, Arash Sanjabi og Janicke Liaaen Jensen

FORFATTERE

Kristine Eidal Tanem, tannlege, ph.d., spesialistkandidat i oral kirurgi og oral medisin. Avdeling for oral kirurgi og oral medisin, Det odontologiske fakultet, Universitet i Oslo
Mats Døving, tannlege, lege i spesialisering i maxillofacial kirurgi og ph.d.-kandidat. Kjeve- og ansiktskirurgisk avdeling, Oslo universitetssykehus, Ullevål
Arash Sanjabi, tannlege, spesialist i endodonti. Privat praksis, Oslo
Janicke Liaaen Jensen, tannlege, professor, spesialist i oral kirurgi og oral medisin. Avdeling for oral kirurgi og oral medisin, Det odontologiske fakultet, Universitet i Oslo

Korresponderende forfatter: Kristine Eidal Tanem, e-post: k.e.tanem@odont.uio.no

Akseptert for publisering 24.07.2024

Artikkelen er fagfelleurdert

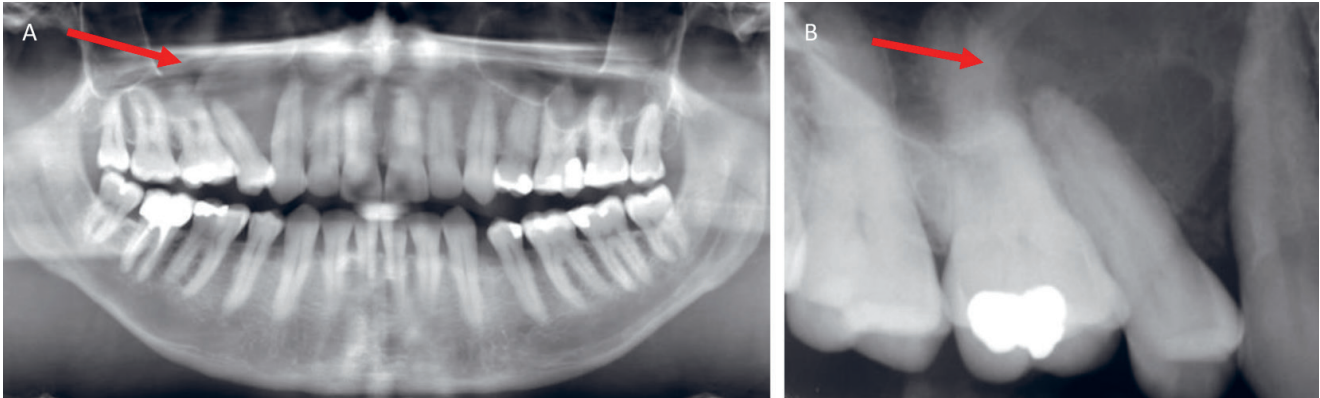
Artikkelen siteres som:
Tanem KE, Døving M, Sanjabi A, Jensen JL. Ameloblastom i overkjeven – veien til rett diagnose. En kasuistikk.

Nor Tannlegeforen Tid. 2024; 134: 968-72.

Selv om ameloblastom er en av de vanligste odontogene tumorene, så er det en sjelden tilstand. Lokalisasjonen er hyppigst i underkjeven, mens mindre enn 20 % av tilfellene forekommer i overkjeven. Symptomatisk og klinisk kan ameloblastom mistolkes som andre mer vanlige patologiske forandringer i kjevene, og det er derfor viktig med kunnskap som gjør at man kan skille mellom disse. Vi presenterer et kasus hvor en 52 år gammel mann oppsøkte tannlegen på grunn av en ekstra- og intraoral hevelse på høyre side i overkjeven, hvor grundig utredning ble essensielt for diagnostikk, behandling og videre oppfølging.

Bakgrunn

En 52 år gammel kaukasisk mann oppsøkte allmennpraktiserende tannlege på grunn av en ekstra- og intraoral hevelse vestibulært i overkjeven regio 13–14. Pasienten hadde oppdaget hevelsen ca. 4 uker før henvisningstidspunktet, hvor han kjente svak trykkømheter. Det var ingen historikk med tannrelatert smerte eller tyggeømheter. Pasientens generelle helse var god, med unntak av høyt kolesterol som var velregulert ved bruk av medikamenter. I tillegg kunne han informere om en nylig skulderoperasjon, der han fortsatt brukte reseptfrie analgetika, noe som kan ha redusert eventuelle symptomer relatert til hevelsen i overkjeven. Pasienten hadde snust i 20 år, men sluttet 5 uker før han kom til undersøkelse.



Figur 1 A–B. A: Panoramarøntgen viser osteolytisk prosess i høyre overkjeve. B: Perikapikalt røntgen viser den osteolytiske prosess med stedvis multilokulært utseende i regio 13–16.

Utredning og behandling

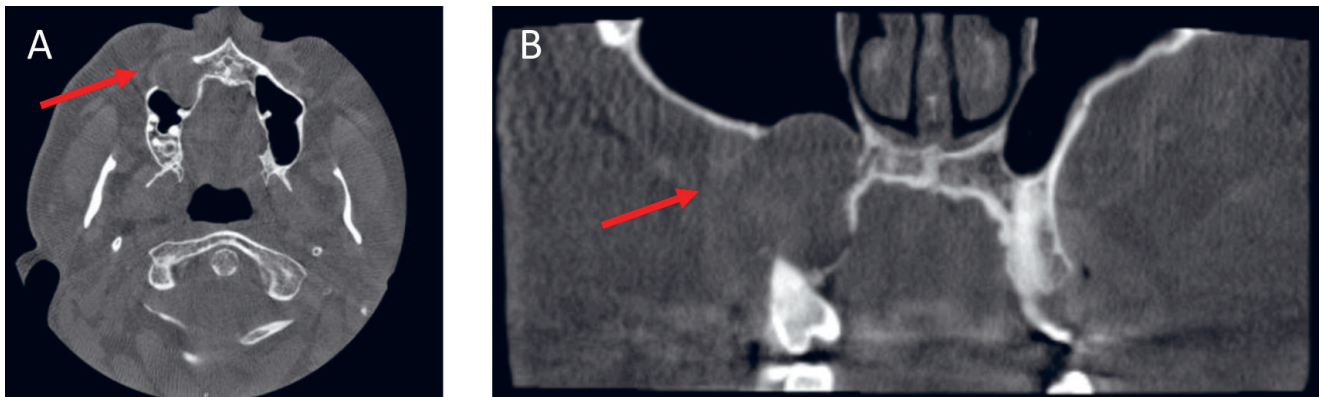
Etter primær kontakt med allmenntannlege ble pasienten henvist til spesialist i endodonti på grunn av mistanke om at hevelsen var forårsaket av apikal lesjon utgående fra nekrotisk tann i regio 13–16. Pasienten manglet tenner 15 og 25, ukjent etiologi. Tenner 13, 14 og 16 var intakte, uten traumehistorikk. Ved klinisk undersøkelse var både 13, 14 og 16 perkusjonsømme og reagerte negativ på sensibilitetstest med Endo-Ice spray, sammenlignet med nabotenner. Den intraorale hevelsen ble incidert hos allmenntannlege, uten at det ble notert at det tømte seg puss. Pasienten ble satt på antibiotikakur (fenoksymetylpenicillin 660 mg x 4 per oralt i 7 dager) i påvente av time hos spesialist i endodonti, men han hadde ingen effekt av dette. På grunn av symptomer og kliniske funn, intakte tenner uten traumehistorikk, besluttet endodontisten å ta en Cone Beam Computed Tomography undersøkelse (CBCT), som ga mistanke om odontogen tumor.

I samme tidsrom ble pasienten henvist av fastlegen for magnetisk resonans-undersøkelse (MR), der MR-beskrivelsen pekte mot funn forenelig med aneurysmal bencyste.

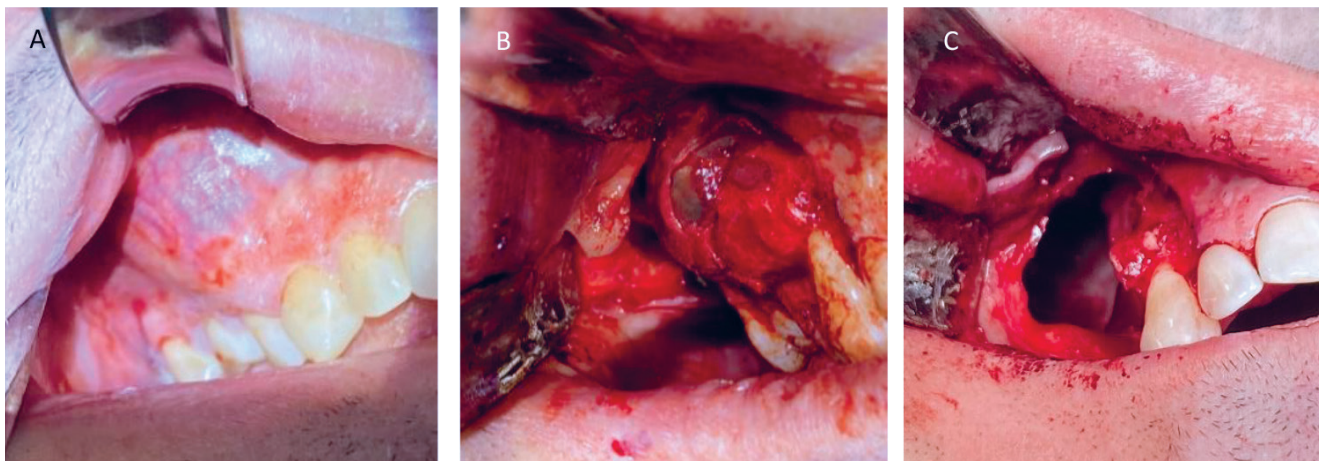
Spesialist i endodonti henviste pasienten videre til spesialist i oral kirurgi og oral medisin ved Avdeling for oral kirurgi og oral medisin ved Det Odontologiske Fakultet (DOF) i Oslo. På grunn av usikkerhet ved tolkning av funn på første CBCT, ble det besluttet å ta en ny CBCT-undersøkelse ved konsultasjon på DOF. CBCT viste en osteolytisk prosess (ca. 20 x 17 x 25 mm) i overkjeven regio 13–16. I tillegg ble det tatt periapikalt røntgen og panoramarøntgen (figur 1 A–B). Prosessen ekspanderte inn i sinus maxillaris høyre side, hadde et multilokulært preg, med uttynning av kortikale avgrensinger og et kortikalt gjennombrudd i buccale benavgrensning. Ved DOF ble det samme dag som CBCT-undersøkelse tatt en insi-

sjonsbiopsi av forandringen i lokal anestesi. Klinisk ble vevet beskrevet som «cystisk», med noe «boblete» bløtvev med grålig overflate. Prøven ble fiksert i 10 % formalin og sendt for histopatologisk undersøkelse ved Avdeling for Patologi, Oslo Universitetssykehus (OUS) Rikshospitalet som CITO. Histologiske funn var forenelige med ameloblastom, follikulær og plexiform type, altså en benign odontogen tumor.

På grunn av tumors infiltrerende vekst i sinus maxillaris, og mulig manglende benet begrensning, ble pasienten henvist videre til Kjeve- og ansiktskirurgisk avdeling på OUS, Ullevål, for videre behandling. Det ble her i tillegg tatt en Computed Tomography (CT) undersøkelse (figur 2 A–B). Pasienten ble satt opp til operasjon i generell anestesi, med planlagt kyrretasje av tumor. Tann 14 ble ansett som tappt ettersom den hadde lomme til apeks og omfattende lokalt bentap, tann 16 ble henvist for prekirurgisk endodontisk behandling, og det ble i samråd med endodontist besluttet at tann 13 kunne observeres. Pasienten ble grundig informert om status, behandlingsprosedyre og relevante komplikasjoner til inngrepet, samt om risiko for tilbakefall. Figur 3 A viser pre-operativt klinisk foto av hevelsen i høyre overkjeve. Det ble lagt et buccalt randsnitt med mesialt og distalt hjelpesnitt i regio 12–18. Mucoperiostal lapp ble løftet opp og flere steder kunne man se tumors gjennombrudd i kortikalt ben (figur 3 B). Tann 14 ble ekstrahert med tang. Det ble så etablert et sjikt mellom periost og tumorvegg, hvor tumor så ble skånsomt kyrretert i sin helhet (figur 3 C) og fiksert på 10 % formalin for histopatologisk undersøkelse. Mot nesehulen adhererte tumor mot sinuslimhinne, og deler av slimhinnen ble derfor fjernet med gode marginer. Det ble registrert en større åpning inn til sinus maxillaris. Etter fjerning av tumor, ble tumorkaviteten grundig inspisert med kyrette for eventuelt gjenværende tumorvev. Mucoperiostal lapp ble mobilisert for tensjonsfri primær lukking



Figur 2 A–B. A: Axialt CT snittbilde viser osteolytisk prosess i overkjeven høyre side i regio 13 til 16 med ekspansjon mot det buccale. B: Coronal CT snittbilde viser lesjonens utstrekning i regio 14, med oppdrivning inn i sinus maxillaris.



Figur 3 A–B. A: Pre-operativt klinisk foto av tumor som ekspanderer i overgangsfolden regio 13–16. B: Per-operativt klinisk foto som viser tumor utstrekning og perforasjon av buccale benvegg etter at mucoperiostal lapp er elevvert. C: Per-operativt klinisk foto av benkavitet etter kyrretasje av tumor og ekstraksjon av tann 14.

med resorberbare suturer. Det post-operative forløpet var ukomplisert. Ved kontroll 3 og 6 uker post-operativt var pasienten ved god allmenntilstand, og intraoralt så man fin bløtvevstilheling uten dehisens eller kliniske tegn til infeksjon. Panoramarøntgen ble tatt ved 6 ukers kontroll (figur 4). Pasienten ble informert om videre kontrollintervaller med neste kliniske og radiologiske kontroll planlagt 6 måneder post-operativt. Deretter med årlig kontroll i minst 10 år på grunn av risiko for residiv.

Diskusjon

Ameloblastom er en benign odontogen tumor som utgår fra ektodermalt epitel (1). Den har et lokalt aggressivt vekstmønster som kan infiltrere ben og tilgrensende strukturer (2, 3). Selv om den er sjelden, er det den vanligste odontogene tumoren etter odontom (4). Samlet

global insidens er rapportert til å være 0.92 per million innbyggere per år (5), men med store geografiske forskjeller (5, 6). En norsk studie publisert i 2014, fant en insidens i Norge på 1.6 per million per år i perioden 2000–2009. Forfatterne påpekte at det var en risiko for at noen pasienter var blitt dobbeltregistrert, og at det derfor var en falskt høy insidensrate (7). Tumoren er vanligst i aldersgruppen 30–60 år, med tilnærmet lik fordeling mellom kjønnene (8, 6). Klinisk manifesterer ameloblastom seg ofte som en saktevoksende, symptomfri hevelse, noe som ofte gjør at den diagnostiseres på et sent tidspunkt (9). Vanlige radiologiske funn er en unilokulær eller multilokulær osteolytisk prosess, ofte med kortikal ekspansjon og fortynning av omkringliggende ben (6). Resorpsjon av tenner sees i noen tilfeller (6). Ameloblastomer utgjør en heterogen gruppe tumores som kan subclassifiseres i unicystisk, konvensjonell (solid/multicystisk), peri-



Figur 4. Panoramarøntgen ved kontroll 6 uker etter operasjon.

fer og metastaserende type (10). I tillegg ble adenoid ameloblastom introdusert som en ny undergruppe i WHO's oppdaterte klassifisering av odontogene tumores i 2022 (10). Konvensjonell type, tidligere omtalt som solid/multicystisk type, regnes som den vanligste typen (10). Videre kan de konvensjonelle ameloblastomene deles inn i to histopatologiske undergrupper; follikulær og plexiform, som ofte kan forekomme i kombinasjon (3,5,6,11).

Underkjeven er hyppigste lokalisasjon for ameloblastom, mens overkjeven sjeldnere rammes (6). Ameloblastomer er 5 ganger vanligere i underkjeven, ettersom mindre enn 20 % forekommer i overkjeven (3,6,9). I motsetning til underkjeven som i hovedsak består av kompakt/kortikalt ben, er overkjeven for det meste spongiøst ben, noe som kan føre til at ameloblastom i overkjeven lettere gir buccal ekspansjon og kan vokse inn i nærliggende anatomiske strukturer, slik som nesekaviteten, øyehulen og kraniet (2, 3). I teorien kan ameloblastom forekomme i hele overkjeven, men posterior for hjørnetann er vanligst, da bare 2 % av de maxillære tilfellene er rapportert anteriort i premaxilla (3).

Symptomatisk og klinisk kan ameloblastom ofte mistolkes som andre patologiske forandringer i kjevene, f.eks. periapikal-/radikulærcyste, follikulærcyste eller odontogen keratocyste (12). Diagnostikken kan være utfordrende, og i kasus med usikkerhet vil utvidet røntgenundersøkelse med CBCT/CT og biopsi være viktig. Vårt kasus ble initielt vurdert som en infisert periapikalcyste relatert til en nekrotisk tann, som er en av de mer vanlige patologiske forandringene i kjevene (12). Periapikale cyster kan gi hevelse, både med eller uten smerte. I vårt kasus var det intakte tenner uten traumehistorikk, noe som reduserte mistanken om periapikal cyste. En viktig del av utredningen var CBCT-undersøkelsen, som gav mistanke om odontogen tumor og dermed førte til henvisning videre til spesialist i oral kirurgi og oral medisin. I regi av fastlege fikk pasienten, parallelt

med den oralkirurgiske utredningen, tatt en MR, der beskrivelsen pekte i retning av aneurysmal bencyste. Radiologisk uttrykk ved aneurysmale bencyster er ofte multilokulær radiolusens, med kortikal ekspansjon og brudd i bengrenser (12), mye av de samme radiologiske funn som ofte sees ved ameloblastom (6). Samtidig er aneurysmale bencyster svært sjeldent i overkjeven, og således ville odontogen keratocyste være en mer aktuell differensialdiagnose (12).

Ameloblastom behandles primært med kirurgi (9), der den kirurgiske tilnærmingen enten er konservativ eller radikal (9). Konservativ kirurgi innebærer enukleasjon og/eller kyrretasje, mens radikal kirurgisk behandling vil si reseksjon av deler av kjeven med frie marginer, helst ca. 1 cm (6, 13). På grunn av høy risiko for residiv ved konservativ behandling, anført i opptil 60–80 % av tilfellene, er radikal kirurgi med reseksjon sterkt anbefalt (3, 13, 14). Utfordringen med en radikal tilnærming er at det gir et betydelig større tap av ben- og bløtvev, og ofte store estetiske og funksjonelle sekveler (8), som kan gi behov for omfattende rekonstruksjon (13). Ved behov for rekonstruksjon kan rehabilitering i overkjeven innebære en transplantert hudlapp og deretter fremstilling av en obduratorprotese, alternativt kan rekonstruksjon av bentap og mucosa gjøres ved autologt bentransplantat i kombinasjon med en fri vaskularisert bløtvevslapp (13). Hvor så implantater kan settes i bentransplantat for protetisk rekonstruksjon (13). Dette er behandlinger som innebærer utfordrende og tidkrevende kirurgi, og prosedyrer som gir økt risiko for morbiditet (13). Til tross for anbefalingen om radikal kirurgi med tanke på å redusere risiko for residiv, kan konservativ behandling med kyrretasje være en forsvarlig tilnærming for mange pasienter. Dette fordrer at man har gjort en individuell vurdering av pasient der man overveier risikoen for tilbakefall mot mulige sekveler og behov for rekonstruktiv kirurgi, samt risikoen for redusert livskvaliteten i etterkant av inngrepet (8).

I vårt kasus ble det gjort en slik individuell vurdering, og det ble besluttet at pasienten var best tjent med konservativ behandling. Dette er i tråd med tradisjon for behandling av ameloblastom både ved OUS og Haukeland Universitetssjukehus (7). I tilfeller med valg av konservativ behandling må pasienten være vel informert om risikoen for tilbakefall og behovet for langvarig oppfølging. Pasienter med ameloblastom bør følges opp med årlig radiologisk kontroll (panoramarøntgen) i minst 10 år etter behandling (8,14).

Klinisk budskap

Selv om ameloblastom i overkjeven er sjeldent, er det viktig at tannleger har kunnskap om denne tilstanden. Vårt kasus eksemplifiserer

at dersom de kliniske og konvensjonelle radiologiske undersøkelsene ikke leder frem til et svar, er det nødvendig med mer omfattende utredning i jakten på riktig diagnose. Behandling av ameloblastom med konservativ kirurgi kan gi mindre sekveler for pasienten, men innebærer høyere risiko for tilbakefall, og har derfor behov for tett oppfølging i lang tid post-operativt.

Pasienten har gitt samtykke til publisering av kasus.

Takk

Takk til pasienten.

Linda Z. Arvidsson ved Avdeling for kjeve- og ansiktsradiologi, UiO

Tine Merete Søland ved Avdeling for patologi, OUS

REFERANSER

- Palanisamy JC, Jenzer AC. Ameloblastoma. 2023 Jul 3. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2023 Jan-. PMID: 31424749.
- Meng Y, Zhao YN, Zhang YQ, Liu DG, Gao Y. Three-dimensional radiographic features of ameloblastoma and cystic lesions in the maxilla. *Dentomaxillofac Radiol.* 2019 Sep;48(6):20190066.
- Evangelou Z, Zarachi a, Dumollard JM, Peoc'h M, Komnos I, Kastanioudakis, et al. Maxillary Ameloblastoma: A review with clinical, histological and prognostic data of a rare tumor. *In Vivo.* 2020; 34: 2249-58.
- Wright JM, Vered M. Update from the 4th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumors. *Head Neck Pathol.* 2017 Mar; 11(1): 68-77.
- Hendra FN, Van Cann EM, Helder MN, Ruslin M, de Visscher JG, Forouzanfar T, et al. Global incidence and profile of ameloblastoma: A systematic review and meta-analysis. *Oral Dis.* 2020 Jan; 26(1): 12-21.
- Kreppel M, Zöller J. Ameloblastoma – Clinical, radiological, and therapeutic findings. *Oral dis.* 2018; 24: 63-6.
- Kubon A, Johannessen AC, Løes S, Tornes K. Ameloblastomer i Norge. *Nor Tannlegeforen Tid.* 2014; 124: 884-3.
- Boffano P, Cavarra F, Tricarico G, Masu L, Bruccoli M, Ruslin M et al. The epidemiology and management of ameloblastomas: A European multicenter study. *J Craniomaxillofac Surg.* 2021 Dec; 49(12): 1107-12.
- Hendra FN, Natsir Kalla DS, Van Cann EM, de Vet HCW, Helder MN, Forouzanfar T. Radical vs conservative treatment of intraosseous ameloblastoma: Systematic review and meta-analysis. *Oral Dis.* 2019 Oct; 25(7): 1683-96.
- Vered M, Wright JM. Update from the 5th Edition of the World Health Organization Classification of Head and Neck Tumours: Odontogenic and Maxillofacial Bone Tumours. *Head Neck Pathol.* 2022 Mar; 16(1): 63-75.
- Hertog D, Bloemena E, Aartman IHA, van-der-Waal I. Histopathology of ameloblastoma of the jaws; some critical observations based on a 40 years single institution experience. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2012 Jan 1; 17(1): e76-82.
- McLean AC, Vargas PA. Cystic Lesions of the Jaws: The Top 10 Differential Diagnoses to Ponder. *Head Neck Pathol.* 2023 Mar; 17(1): 85-98.
- Pogrel MA, Montes DM. Is there a role for enucleation in the management of ameloblastoma? *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2009; 38: 807-12.
- Almeida Rde A, Andrade ES, Barbalho JC, Vajgel A, Vasconcelos BC. Recurrence rate following treatment for primary multicystic ameloblastoma: systematic review and meta-analysis. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2016 Mar; 45(3): 359-67.

ENGLISH SUMMARY

Tanem KE, Døving M, Sanjabi A, Jensen JL.

Ameloblastoma in the upper jaw – finding the right diagnosis. A case report

Nor Tannlegeforen Tid. 2024; 134: 968-72.

Ameloblastoma is a rare benign odontogenic tumor. The tumor is most common in the lower jaw, and less than 20 % of the cases are found in the upper jaw. This clinical case presents a 52-year-old Caucasian man that developed a slow growing lesion on the upper jaw, with few symptoms. The lesion was first considered to be an apical lesion related to a necrotic tooth. However, after further clinical, radiological and histopathological investigation the diagnosis

of ameloblastoma was confirmed. This case highlights the diagnostic challenges met in everyday dental practice, and the importance of thorough investigation using different radiology modalities, clinical evaluation and testing. Due to the invasive growth pattern and the high risk of recurrence, treatment of ameloblastoma should be based on individual evaluation and close follow up for several years.