



OLGU SUNUMU

MAKSİLLA AMELOBLASTİK KARSİNOMU: OLGU SUNUMU⁺

MAXILLA AMELOBLASTIC CARSINOMA : CASE REPORT

Dr. Engin DURSUN* Dr. Mehmet TURANLI* Dr. Necmi ARSLAN*

Dr. Onur ÇETİN* Dr. Selçuk ÖZKAN*

ÖZET

Ameloblastik karsinoma, oldukça nadir görülen odontojenik bir tümördür. Primer, reküren veya metastatik ameloblastomada, metastaz olsun veya olmasın histolojik olarak malignansı bulgularını bulundurmasıyla karakterizedir. Bu makalede, maksilla ameloblastik karsinomlu 51 yaşındaki bir erkek olgu sunulmuş ve tümörün güncel bilgileri tartışılmıştır. Olgunun manyetik rezonans görüntüleme ve bilgisayarlı tomografi incelemelerinde muayene bulgularıyla uyumlu: sol maksiller sinüs ve sert damak sol yarısını tutan; maksiller kemik palatin-malar proseste, maksiller sinüs inferior-lateral-posterior duvarlarında ve pterygoid proseslerde destrüksiyona neden olan; pterygoid fossayı dolduran; medial pterygoid kasa ve lateral pterygoid kas anterioruna invazyon gösteren; masseter komşuluğundaki yağ dokusuna uzanan; posteriorda sol orbital inferior duvarıyla yakın komşuluk gösteren; içerisinde molar diş bulunan, lobule konturlu, dicensiz sınırlı, yaklaşık 5.5x4x3.5 cm boyutlarında solid kitle lezyonu belirlenmiştir. Olguya sol genişletilmiş total maxillektomi operasyonu ve postoperatif radioyoterapi uygulanmıştır. Olgu yakın takip edilmekte olup kısa dönemde rekürens ve metastaz izlenmemiştir. Çene kemiklerinde kitle ile gelen olgularda, ameloblastomaya göre daha az sıklıkta izlenmesine rağmen, daha agresif cerrahi tedavi gerektirmesi, rekürens ve metastaz özellikleri nedeniyle ameloblastik karsinoma ayrıca tanıda düşünülmeli dir.

Anahtar Sözcükler: Ameloblastik karsinoma, odontojenik tümör, maksilla, cerrahi.

SUMMARY

Ameloblastic carcinoma is a very rare odontogenic tumour. Aameloblastic carcinoma tends to be used to describe those ameloblastomas in which there is evidence of malignancy in the primary, recurrent or metastatic tumor, regardless of whether or not there is metastasis. In this article, a 51 year-old male patient with maxillary ameloblastic carcinoma was presented and recent update tumor was discussed. Both magnetic resonance imaging and computerized tomography scans showed lobulated, 5.5x4x3 cm solid mass involving left maxillary sinus, hard plate with destruction of bone palatine and also pterygoid plates, pterygoid muscles, molar teeth. Left extended total maxillectomy was done and postoperatively adjuvant radiation was given. There is no recurrence or distant metastases in the short-term follow-up period. Although ameloblastic carcinoma is rarer than ameloblastoma, it should be considered in the differential diagnosis of cases with jaw mass due to its propensity to recurrence and metastases and needs aggressive surgery.

Key Words: Ameloblastic carcinoma, odontogenic tumour, maxilla, surgery.

*S.B. Ankara Onkoloji Eğitim ve Araştırma Hastanesi K.B.B. Baş ve Boyun Cerrahisi Kliniği - ANKARA

+ 26. Türk Otorinolaringoloji ve Baş-Boyun Cerrahisi Kongresinde poster olarak sunulmuştur.

Çalışmanın Yapıldığı Klinik(ler) : S.B. Onkoloji Hast. KBB Kliniği

Çalışmanın Dergiye Ulaştığı Tarih : 10.11.2001

Çalışmanın Basına Kabul Edildiği Tarih : 24.12.2001

Yazışma Adresi : Dr. Engin DURSUN, Ergin Sokak 43/5 Mebusevleri / Tandoğan 06580 ANKARA

e-posta : ebdursun@superonline.com



GİRİŞ

Ameloblastoma, çene kemiklerinin nadir görülen odontojenik bir tümördür. Genellikle enamel formasyonundan önceki safhada gelişimi duran, embriyojenik dişin epitelial komponentlerinden gelişir (1,11). Çenedeki tüm kist ve tümörlerin %1'ini oluşturur (1). Yaklaşık %80 oranında mandibulada, %20 maksillada görülür (11). Ameloblastomalarda malign değişiklikler nadiren görülür ve değişik histolojik ve klinik davranışları gösterirler (1). Bu nedenle, terminolojilerindeki arayışlar ve tartışmalar uzun yıllar devam etmiştir. Ameloblastomalardan gelişen karsinomalar için malign ameloblastoma, ameloblastik karsinoma, metastatik ameloblastoma ve primer interalveolar epidermoid karsinoma gibi terimler literatürde sıkça kullanılmıştır (3,11).

TABLO - 1. Odontojenik tümörlerin ilk sınıflaması
[Pindborg ve arkadaşları (15)]

- A. Malign ameloblastoma
- B. Primer intraosceoz karsinoma
- C. Odontojenik kistlerden gelişenleri de içeren odontojenik epitelden gelişen diğer karsinomalar

1972 yılında Dünya Sağlık Organizasyonu (World Health Organization-WHO) tarafından, odontojenik tümörlerin ilk sınıflaması yapılmış [Pindborg ve arkadaşları (15)] (Tablo-1) ve malign ameloblastoma terimi kullanılmıştır. Bu tanımlamaya, çenedeki primer yer alan ve herhangi metastatik gelişim gösteren ameloblastoma olguları belirtilmiştir. Komşu hayatı dokulara direkt invazyon yaparak hayatı tehdit eden ameloblastomalar bu sınıflamanın dışında tutulmuş; böylece malignensinin tek kriteri sanka metastazmış gibi gösterilmiştir (1). Ayrıca, malign ameloblastoma diğer primer intraosceoz karsinomlardan ayrı olarak düşünülmüştür (7).

TABLO - 2. İnterasceoz karsinomlarının sınıflaması [Elzay (6)]

- Tip 1.** Ex odontojenik kistlerden gelişen
- Tip 2.** Ex ameloblastomadan gelişen
 - A. Malign ameloblastoma (iyi diferansiyeli)
 - B. Ameloblastik karsinoma (zayıf diferansiyeli)
- Tip 3.** "De nova" gelişen
 - A. non-keratinize
 - B. keratinize

Elzay (6) 1982 yılında çenenin intraosceoz karsinomalarının değişik bir sınıflamasını önermiştir (Tablo-2). Bu sınıflamada, malign ameloblastoma, ameloblastik karsinomadan klinik davranışından çok, histolojik özellikleri ile ayırmıştır (6,7). Slootweg ve Müller (16) 1984 yılında bu sınıflamayı genişletecek yeni bir sınıflama bildirmiştir (Tablo-3). En yeni sınıflama, Dünya Sağlık Örgütünün 1992 yılında kabul ettiği sınıflamadır [Kramer ve arkadaşları (9)](Tablo-

4).

TABLO - 3. Odontojenik karsinomalarının sınıflaması
[Slootweg ve Müller (16)]

- Tip 1.** Primer intraosceoz karsinoma ex odontojenik kist

- Tip 2.** A. Malign Ameloblastoma

- B. Ameloblastik Karsinoma
- 1. "De nova"
- 2. Ex ameloblastoma
- 3. Ex odontojeik kist

- Tip 3.** "De nova" gelişen primer intraosceoz karsinoma

- A. non-keratinize
- B. keratinize

TABLO - 4. Odontojenik karsinomalarının sınıflaması
[Kramer ve arkadaş (9)]

- A. Malign Ameloblastoma

- B. Primer Intraosceoz Karsinoma

- C. Diğer odontojenik epitelial tümörlerin malign varyantları

- D. Odontojenik kistlerde malign değişiklikler

Literatürde otörlerin çoğu, malign ameloblastoma deyişimi içine ameloblastomanın histolojisine bakmadan, agresif davranışını gösteren veya metastaz yapan olguları katarken; diğer kısmı da, günümüzde daha çok kabul gören malign ameloblastoma ve ameloblastik karsinoma deyimlerini ayırlar (3). Ameloblastik karsinoma terimi ile, primer, rekürrent veya metastatik ameloblastomada, metastaz olsun veya olmasın histolojik olarak malignensi bulgularının bulunması (3,6,8); malign ameloblastoma terimiyle de, primer ve metastatik lezyonun her ikisinde de benign veya tipik histolojik görünüm sahip ameloblastomaların, metastaz yaptığı durum ifade edilmektedir (3,13,14,17).

Ameloblastik karsinoma, maksillanın oldukça nadir görülen bir malign tümördür (4,8,11). Bu nedenle, klinik özelliklerini iyi bilinmesine ve son bildirilen yayılarda iyi tanımlanmasına rağmen, tanısı, histolojik sınıflaması, tedavisi ve прогнозu tartışmalıdır (8).

Bu makalede, maksilla ameloblastik karsinomlu bir olgu sunulmuş ve tümörün güncel bilgileri tartışılmıştır.

Olgu Sunumu

51 yaşında erkek olgu, üst damakta şişlik ve ağrı şikayetleri ile başka bir merkezden, ameloblastoma ön tanısıyla Nisan 2001'de kliniğimize sevkedildi. Damaktaki şişliğin bir yıl önce farkına vardığını, ağrı dışında şikayetini olmadığını belirtti. Geçen süre içerisinde bir çok defa medikal tedavi kullandığı ve Mart 2001'de damaktaki şişlikten biyopsi yapıldığı sonucunun ameloblastoma olarak rapor edildiği öğrenildi. Daha önce geçirilmiş bir cerrahi ve sistemik bir hastalık belirlenemedi.



Dr. Engin DURSUN ve Arkadaşları

K.B.B. ve BBC Dergisi, (9) : 164-169, 2001

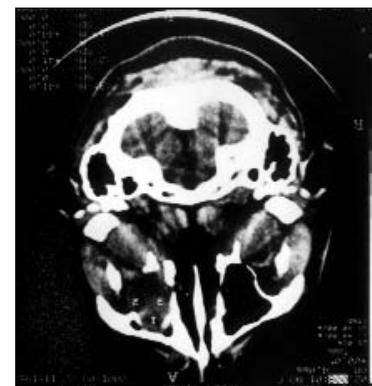


Resim-1. Ağız içinde üst damak sol tarafta 1. premolar diş hizasından başlayarak , arkada sol tonsil ön plikasına 1 cm yakınlığa ve medialde damak orta hattına kadar uzanan mukozadan yaklaşık 1,5 cm kabarık, palpasyonla sert, yaklaşık 4x3 cm boyutlarında şişlik izlenmektedir.

Fizik muayenesinde ağız içinde üst damak sol tarafta üst 1. premolar diş hizasından başlayarak, arkada sol tonsil ön plikasına 1 cm'e yakınlığa ve medialde damak orta hattına kadar uzanan, mukozadan yaklaşık 1,5 cm kabarık, üzeri mukozayla örtülü, palpasyonla sert, yaklaşık 4x3 cm boyutlarında şişlik izlendi (resim-1).

Olgunun bilgisayarlı tomografi (BT) ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) incelemelerinde muayene bulgularıyla uyumlu: sol maksiller sinüsü ve sert damak sol yarısını tutan; maksiller kemik palatin-malar proste, maksiller sinüs inferior-lateral-posterior duvarlarında ve pterygoid proseslerde destrüksiyona neden olan; pterygoid fossayı dolduran; medial pterygoid kasa ve lateral pterygoid kas anterioruna invazyon gösteren; masseter komşuluğundaki yağ dokusuna uzanan; posteriorda sol orbital inferior duvarıyla yakın komşuluk gösteren; içerisinde molar diş bulunan, lobule konturlu, düzensiz sınırlı, yaklaşık 5.5x4x3.5 cm boyutlarında solid kitle lezyonu belirlenmiştir (Resim-2,3,4,5,6,7,8,9,10,11,12). Kitleden yapılan biyopsi sonucu ameloblastik karsinom olarak rapor edildi (S.B. Ankara Onkoloji Hastanesi Patoloji Bölümü, 04.04.2001-2871).

Lokal ve uzak metastaza yönelik yapılan, boyun, toraks ve kranial BT'lerinde, tüm batın ultrasonografisinde, tüm vücut kemik sintigrafisinde patolojik bulgu saptanamadı. Olguya genel anestezî altında pterygoid kasları ve pterygoid processleri de içine alacak şekilde total genişletilmiş makssillektomi operasyonu uygulandı. Olgunun patoloji spesmeninin değerlendirilmesi sonucunda da ameloblastik karsinom olarak rapor edildi (S.B. Ankara Onkoloji Hastanesi Patoloji Bölümü, 10.05.2001 / 4202) ve cerrahi sınırlar temiz olarak belirlendi (S.B. Ankara Onkoloji Hastanesi Patoloji Bölümü, 10.05.2001 / 4172-73-74-75-76). Olguya postoperatif radyoterapi uygulandı. Olgunun, postoperatif 4. ayda yapılan muayene ve radyolojik bulgularında rekürrens ve metastaz izlen-

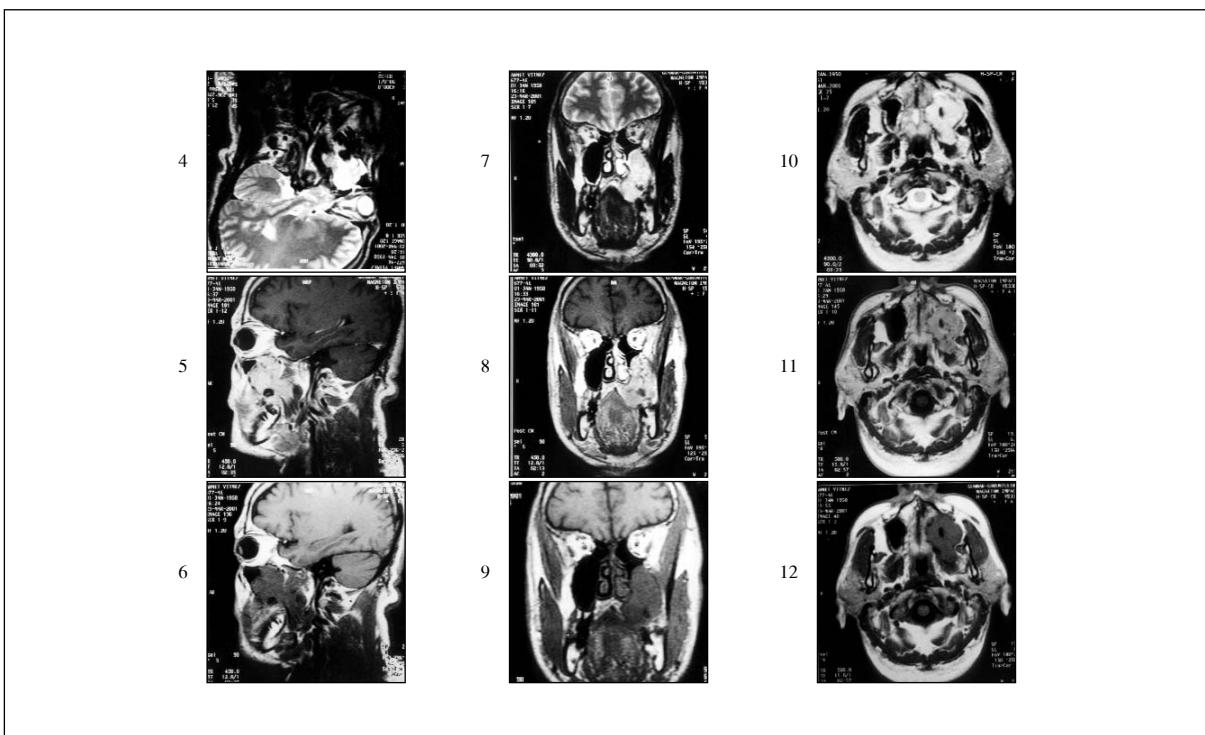


Resim-2,3. Olgunun preoperatif BT'lerinde sol set damacı ve sol maksiller sinüsü tutan, içerisinde molar diş bulunan, komşuluğundaki kemik yapılarında destrüksiyona sebep olan, pterygopalatine fossaya uzanan, pterygoid kas yapısına invazyon gösteren lobule konturlu, heterojen dansitede yaklaşık 5.5x4 cm boyutlarında solid kitle izlenmektedir.

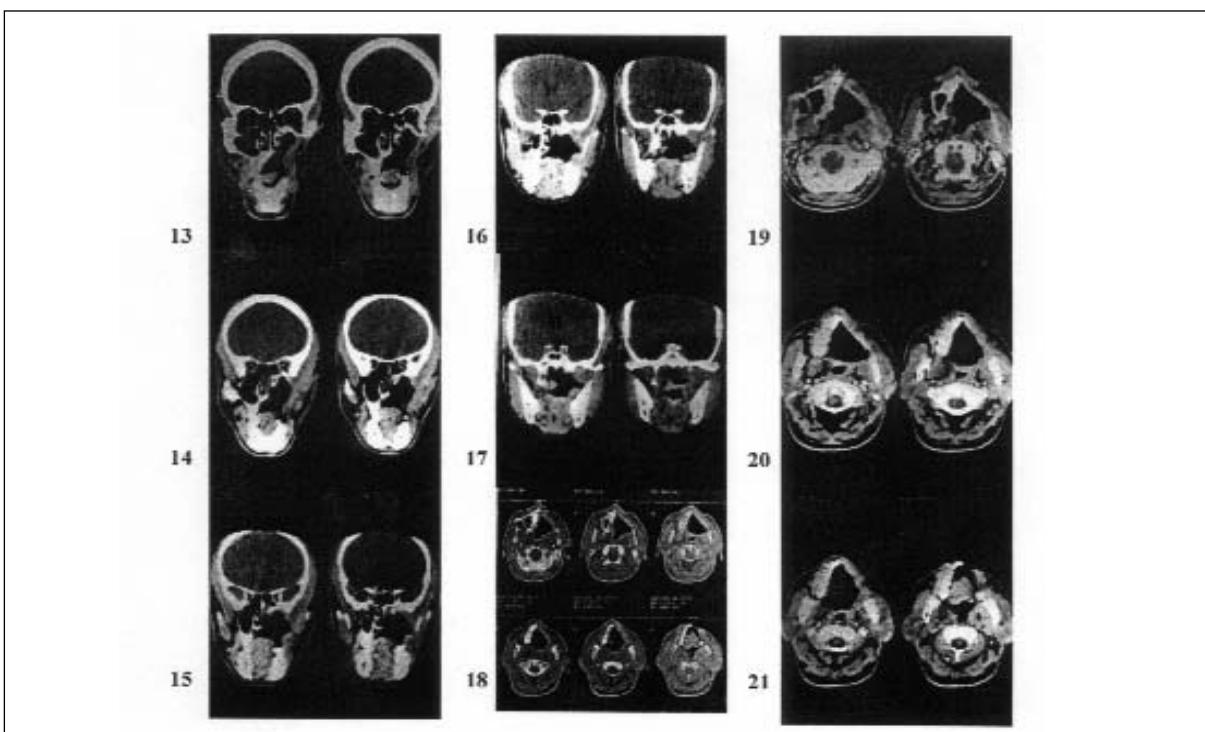
medi (Resim-13,14,15,16,17,18,19, 20,21). Postoperatif dönemde özellikle sol taraftaki çene eklemiñin hareket kaybı, fizik tedavi ile ağız içine obrator yerleştirilebilmesine olanak tanıယacak düzeye gelmiştir.

TARTIŞMA

Ameloblastik karsinoma çene kemiklerinin nadir görülen bir tümöridür (4,7,8,11). Olgular çoğunlukla mandibula da (sıklıkla posterior kısmında), nadiren maksillada izlenir (3,5,7,8,11,13,16). Slootweg ve Müller (16), 15 olguluk serilerinde oranı 14:1, Corio ve arkadaşları (3) 8 olguluk serilerinde oranı 7:1 olarak belirtmişlerdir. Nagai ve arkadaşları (13), literatürde odontojenik karsinom olarak belirlenmiş olguları Slottweg ve Müller'in sınıflamasında göre tekrar değerlendirmişler, 46 lezyonu AK olarak kabul etmişler ve oranı 4:1 olarak vermişlerdir. Lolachi ve arkadaşları (11), 1995 yılına kadar İngiliz literatüründe 34 ameloblastik karsinom olgusu olduğunu, bu olguların da yalnızca 11 tanesinin makssillada yerleşim gösterdiğini belirtmişlerdir. Literatürdeki makssilla AK olgularının hemen hemen hepsi, bu makalede



Resim-4,5,6,7,8,9,10,11,12. Olgunun preoperatif MRG'lerinde sol maksiller sinüsü ve sert damak sol yarısını tutan; maksiller kemik palatin-malar proste, maksiller sinüs inferior-lateral-posterior duvarlarında ve pterigoid proseslerde destrüksiyona neden olan; pterigoid fossayı dolduran: medial pterigoid kas ve lateral pterigoid kas anterioruna invazyon gösteren; masseter komşuluğundaki yağ dokusuna uzanan; posteriorda sol orbital inferior duvarında yakın komşuluk gösteren; içerisinde molar diş bulunan, lobule konturlu, düzensiz sınırlı, yaklaşık 5.5x4x3.5 cm boyutlarında solid kitle izlenmektedir.



Resim-13,14,15,16,17,18,19,20,21. Olgunun postoperatif 4. ayda çekilen BT'lerinde operasyona sekonder doku kaybı mevcut olup, rezidü, nüks ve metastaz izlenmemektedir



de olduğu gibi olgu sunumu şeklindedir (1,8,10-12).

AK her yaşı görülebilen, fakat genellikle üçüncü ve dördüncü dekatta da sık izlenen bir neoplazmadır (3,6-8,11,12). Her iki cinsten de eşit oranda görülebilmektedir (3,7,8,11).

Maksillanın AK'u tanıda yardımcı erken bir semptom vermez (8). En sık izlenen semptom ve bulgular, çenede şişlik, ağrı, hızlı büyümeye, infraorbital bölgede uyuşukluk, trismus, disfoni ve damakta fistüldür (3,8,10,11). Olgumuzda da, damakta şişlik, ağrı şikayetleri mevcuttu.

Konvansiyonel radyografilerde ameloblastomlardaki benzer zayıf radiolucent bölge izlenir, fakat klasik ameloblastomlarda izlenmeyeen distrofik mineralizasyon bölgeleri nedeniyle, radioopak bölgeler dağılır (2). Tümörün agresif yapısı ve cerrahi tedavinin planlanmasıında bilgisayarlı tomografi (BT) esastır. Kortikal kemik yapıların ve komşu yumuşak dokuların değerlendirilmesinde, nazal ve orbital fossaya yayılmış ve servikal lenf nodlarının belirlenmesinde BT oldukça yararlıdır (8). Yumuşak dokuların değerlendirilmesinde MRG'nin üstünlüğü düşünülürse, olgumuzda olduğu gibi BT ve MRG'nin preoperatif birlikte değerlendirilmesinin kitlenin natürü ve komşu dokularla ilişkisi hakkında daha kesin bilgiler verdiği inancındayız.

AK'un tedavisi, uzun süreli takiplerin yapıldığı olgu sayısının azlığı nedeniyle tartışımalıdır (7,11). Yine de AK'un yüksek agresif özelliği nedeniyle, temiz cerrahi sınırlar elde edecek radikal cerrahi tercih edilen yaklaşımdır (2,8,11). Enüklasyon veya konservatif cerrahiler terkedilmiştir (8). Selektif veya radikal boyun diseksiyonu cerrahi tedaviye eklenebilir (2,7). Tek başına radyoterapi sınırlı değere sahiptir (1,2). Komşu yumuşak ve kemik dokulara yayılmış cerrahi düşünülmeyen olgularda palyatif amaçla uygulanabilir. Genellikle cerrahi sonrası adjuvan olarak uygulanmaktadır (8). Ayrıca tümörün büyümemesini engelleme veya boyutlarının kü-

çülmesine etkisi olabileceği için, radikal bir cerrahi öncesi de uygulanabilmektedir (1,7). Kemoterapinin tedavideki etkinliği henüz tam olarak ortaya koymamıştır (2). Olgumuzda geniş cerrahi rezeksiyon ve postoperatif radyoterapi uygulanmış, patolojik boyutlarda belirlenebilen servikal lenf nodu olmaması nedeniyle boyun diseksiyonu cerrahi tedaviye eklenmemiştir.

AK'lu olgularda survi nüks ve lokal ve uzak metastazların (özellikle boyun ve ariçiger) görülme olasılığı nedeniyle uzun süreli takiplerle değerlendirilmelidir (3,5,7,10,16). Genel olarak maksilla AK'lu olgularda, maksillanın kemik yapısının karakteristik özelliği ve komşu yapılarla ilişkisi nedeniyle, прогнозun yüz güdürcü olmadığı düşünülmektedir. Kısa sürede ciddi destrüksiyonlar ve komşu yapılara geliş yayılmışlar izlenebilmektedir (8,10).

Primer intra-alveolar epidermoid karsinomadan, klasik ameloblastomlardan, odontojenik kistten gelişen yassı hücreli karsinomadan, squamous odontojenik tümörlerden, kalsifiye epitelial odontojenik tümörden, metastatik tükürük bezini tümörlerinden (pseudoadamantin adenokarsinoma, duktal karsinoma, yüksek gradeli mukoepidermoid karsinoma), ariçiger, göğüs ve gastrointestinal trakt metastatik karsinomlarından ayırcı tanısı yapılmalıdır (3,7).

SONUÇ

Çene kemiklerinde kitle ile gelen olgularda, ameloblastomaya göre daha az sıklıkta izlenmesine rağmen, daha agresif cerrahi tedavi gerektirmesi, rekurrens ve metastaz özellikleri nedeniyle ameloblastik karsinoma ayırcı tanıda düşünülmeli ve olguların tedavi sonrası uzun süreli ve yakın takibi de gereklidir.



KAYNAKLAR

1. ANDERSEN E, BANG G. Ameloblastic carcinoma of the maxilla. A case report. *J Maxillofac Surg*, 14:338-340, 1986.
2. BRUCE RA, JACKSON IT. Ameloblastic carcinoma. Report of an aggressive case and review of the literature. *J Craniomaxillofac Surg*, 19:267-271, 1991.
3. CORIO RL, GOLDBLATT LI, EDWARDS PA, HARTMAN KS. Ameloblastic carcinoma: a clinicopathologic study and assessment of eight cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 64:570-576, 1987.
4. COX DP, MULLER S, CARLSON GW, MURRAY D. Ameloblastic carcinoma ex ameloblastoma of the mandible with malignancy-associated hypercalcemia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 90:716-722, 2000.
5. DORNER L, SEAR AJ, SMITH GT. A case of ameloblastic carcinoma with pulmonary metastases. *Br J Oral Maxillofac Surg*, 26:503-510, 1988.
6. ELZAY RP. Primary intraosseous carcinoma of the jaws. Review and update of odontogenic carcinomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 54:299-303, 1982.
7. GANDY SR, KELLER EE, UNNI KK. Ameloblastic carcinoma: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg*, 50:1097-1102, 1992.
8. INFANTE-COSSIO P, HERNANDEZ-GUISADO JM, FERNANDEZ-MACHIN P, GARCIA-PERLA A, ROLLON-MAYORDOMO A, GUTIERREZ-PEREZ JL. Ameloblastic carcinoma of the maxilla: a report of 3 cases. *J Craniomaxillofac Surg*, 26:159-162, 1998.
9. KRAMER IRH, PINDBORG JJ, SHEAR M. Histological typing of odontogenic tumors. In: International Histologic Classification of Tumors, Springer-Verlag, Berlin, pp:1-42, 1992.
10. LEE L, MAXYMIW WG, WOOD RE. Ameloblastic carcinoma of the maxilla metastatic to the mandible. Case report. *J Craniomaxillofac Surg*, 18:247-250, 1990.
11. LOLACHI CM, MADAN SK, JACOBS JR. Ameloblastic carcinoma of the maxilla. *J Laryngol Otol*, 109:1019-1022, 1995
12. MCCLATCHY KD, SULLIVAN MJ, PAUGH DR. Peripheral ameloblastic carcinoma: a case report of a rare neoplasm. *J Otolaryngol*, 18:109-111, 1989.
13. NAGAI N, TAKESHITA H, NAGATSUKA, H, INOUE M, NISHIJIMA K, NOJIMA T, YAMASAKI M, HOH C. Ameloblastic carcinoma: case report and review. *J Oral Pathol Med*, 20:460-463, 1991.
14. PHILLIPS SD, CORIO RL, BREM H, MATTOX D. Ameloblastoma of the mandible with intracranial metastasis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*, 118:861-863, 1992.
15. PINDBORG JJ, KRAMER IRH, TORLONI H. Histological typing of odontogenic tumours, jaw cysts and allied lesions. World Health Organization, Geneva, pp:35-36, 1972.
16. SLOOTWEG PJ, MULLER H. Malignant ameloblastoma or ameloblastic carcinoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 57:168-176, 1984.
17. UEDA M, KANEDA T, IMAIZUMI M, ABE T. Mandibular ameloblastoma with metastasis to the lungs and lymph nodes: a case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg*, 47:623-628, 1989.