

ADENOMATOİD ODONTOGEN TÜMÖR (AOT)

Doç.Dr. A.Sedat ÇÖLOĞLU(*) ● Doç.Dr. Gülçin ERSEVEN(*) ● Doç.Dr. Tülin ÖZBAYRAK(**) ● Dr. F.Canan ALATLI(*)

ÖZET: 19 ve 16 yaşlarında iki erkek, 15 yaşında bir kız hastamızın çenelerinde ortaya çıkan Adenomatoid odontogen tümör (AOT) olguları bildirildi. Hastalardan birinde tümörle birlikte gömük kanin dişi vardı. İki tümör odontogen bir kistle birlikteydi. AOT'un klinik, radyolojik ve patolojik özellikleri tanımlandı. 1964'de Tahsinoğlu tarafından önerilen ve tümörün tipik mikroskopisini oluşturan adenomatoid lobulus tanımı ile öteki histolojik özellikler tartışıldı.

SUMMARY: *Adenomatoid odontogenic tumor (AOT):* Three additional cases of AOT occurring in jaws are reported. The first two were associated with cysts' epithelium, and the third was an extra-osseous case. The term of "adenomatoid lobulus" described by Tahsinoğlu (30), in 1964, is an unknown and excellent name for the congeries of ameloblastic cells, ductlike structures and the cells resembling stratum intermedium. In our first case, we found a small island of dentinoid, and the other calcifications were resembling the cementum. The tumors were enucleated and showed no recurrences.

GİRİŞ

Adenomatoid odontogen tümör (AOT), ilk kez 1907'de Dreiblad (11) tarafından gösterilmiş, ancak 1948'de Stafne (28) tarafından özgün bir tümör olduğu tanımlanmıştır. 1969'da Philipsen ve Birn (25) tarafından Adenomatoid odontogen tümör (AOT) adı verilene dek çeşitli tanımlamalar altında 76 olgu bildirilmiştir. Bu tanımlamalardan en sık kullanılanı Adenoameloblastoma'dır (1,3,5-7,12,13,16-18,23,27,29,30,34). Adenoameloblastoma adının yanısıra Ameloblastik adenomatoid tümör (18, 33) tanımı da kullanılmıştır.

AOT, klinik davranışı ve histolojik özellikleriyle iyi huylu bir odontogen tümördür. Hastaların % 70'i 10-20 yaşlar arasındadır ve % 64'ü kız çocuğu/kadındır (15). Yaş ve cinsiyet açısından olduğu kadar çenelerdeki yerleşimi açısından da özellikler saptanır. Bildirilmiş olguların büyük bir bölümü üstçenede ve kanin dişler alanında oluşmuşlardır (5,13-18,20,23,24-27,33), altçene tümörleri enderdir (12,13,15,22,25,29,30).

Başlıca klinik bulgu diş sürmesinde gecikme ve bu alandaki hafif kabarıklık (3,5,8,14,15,25,28,30). Yüz asimetrisi yapacak boyutlardaki olgulara seyrek rastlanır (15, 35), ağrı genellikle yoktur (3-5,8,15,25,32). Kistle birlikte olan olgularda şişlik daha belirgindir, bu olgularda flüktüasyon ve krepitasyon bulguları izlenebilir (15, 35). Dişlerde itilme ve dizide bozulmalar olabilir (12,15,23,26,32,35).

Radyolojik incelemelerde, sklerotik-düzenli bir sınırı olan yuvarlakça litik bir lezyon saptanır (1-6,8,13-30,32-35). Olguların büyük bölümü gömük bir diş içerir ve bu diş genellikle kanindir (15,17,18,25,32). Birden fazla gömük diş içeren olgular da bildirilmiştir (15,25,26,35). Litik lezyon içerisinde, gömük dişin yanısıra küçük kireçlenmelere rastlanır (15,17,18,25,32); bu iki özelliğin birarada bulunması patognomoniktir ve dentigeröz kist ile ayırıcı tanıda yararlı bir özelliktir (15). Odontoma ile birlikte olan 1 olgu bildirilmiştir (12).

Tek ve en etkin tedavi yöntemi olan cerrahi girişimde, oldukça iyi kapsüllü ve enükleasyonu kolayca başarılabilen bir oluşumla karşılaşılır, residiv olmaz (4,5,15,17,18,25,32).

Dergiye geldiği tarih: 7.12.1984

(*) İÜ Dişhekimliği Fakültesi, Temel Bilimler Bölümü, Patoloji Birimi. Çapa-İstanbul

(**) İÜ Dişhekimliği Fakültesi, Klinik Bilimler Bölümü, Cerrahi Birimi Çapa, İstanbul

Makroskopik incelemelerde, gömük bir dişin kronunu çevreleyen tümör görülür (1-6,8,13-18,21-30,32-35). Kist çeperinde oluşanlarda, içyüzü döşeyen epitel üzerinde ve lumene doğru kabarıklıklar oluşturan proliferasyonlar vardır (4,5,13-18,21,28,34). Tümör beyaz-pembemsi-sarı renklidir ve kesilirken kumlu izlenim verir (32).

Mikroskopik incelemede başlıca 4 komponent saptanır (32): Ameloblastik hücreler, stratum intermedium'u anımsatan hücreler ve dış mine epitelini taklit eden hücreler. Mikroskopide, özgün ve patognomonik iki yapı dikkati çeker. Bunlardan en önemlisi, epitel hücrelerinden yapılu yuvarlakça kitlelerdir. Bunları ilk kez 1964 de Tahsinoğlu (30) tanımlamış ve Adenomatoid lobulus adını vermiştir. Adenomatoid lobuluslar, ameloblastlar ve stratum intermedium'u anımsatan hücrelerden yapıldır. Ameloblastik hücreler küçük-yuvarlak ya da uzun-tubuler lumenler yaparlar. Lumenlerde niteliği henüz anlayışlamamış eozinofil bir madde buunur. Adenomatoid lobuluslar dışındaki alanlarda ağ gibi kordonlar yapan hücreler dış mine epitelini taklit etmektedirler, bunlar arasında damardan zengin gevşek bir bağ dokusu vardır (30, 31). Tümörde saptanan kireçlenmeler bazan amorf, bazan konsantriktir (3,4,15,17,32). Gölge hücrelerine (9,21), sementikellere (9,15,30) ve keratine (9) rastlanabilir. Stromada amiloid gibi reaksiyon veren madde olabilir (10).

Histogenesiste değişik görüşler vardır. Bazı araştırmacılar hamartoma olduğunu savunurlar (1,2,7,8). Tümör olduğunu savunan araştırmacılar mine organı (20,21,27), dış mine epiteli (3,30), iç mine epiteli (27) ve Malessez epitel kalıntılarını (6,34) başlıca kaynaklar olarak gösterirler. Diş etlerinde oluşmuş (ekstraosseöz) ve bu yerleşimi ender görülen tümörlerin kökeninde ağız mukozasının bazal tabaka epitel hücreleri üzerinde durulmaktadır (4). Odontogen kistler ise, her türden odontogen tümörün oluşabileceği bir epitelle döşelidir (32).

Bu çalışmada, 1971-1984 yılları arasında fakültemize gelerek tedavi edilmiş 3 hastada saptanan AOT olgularının ayrıntılarını bildirmeyi ve konuyla ilgili kaynak verileri tartışmayı amaçladık.

OLGULAR

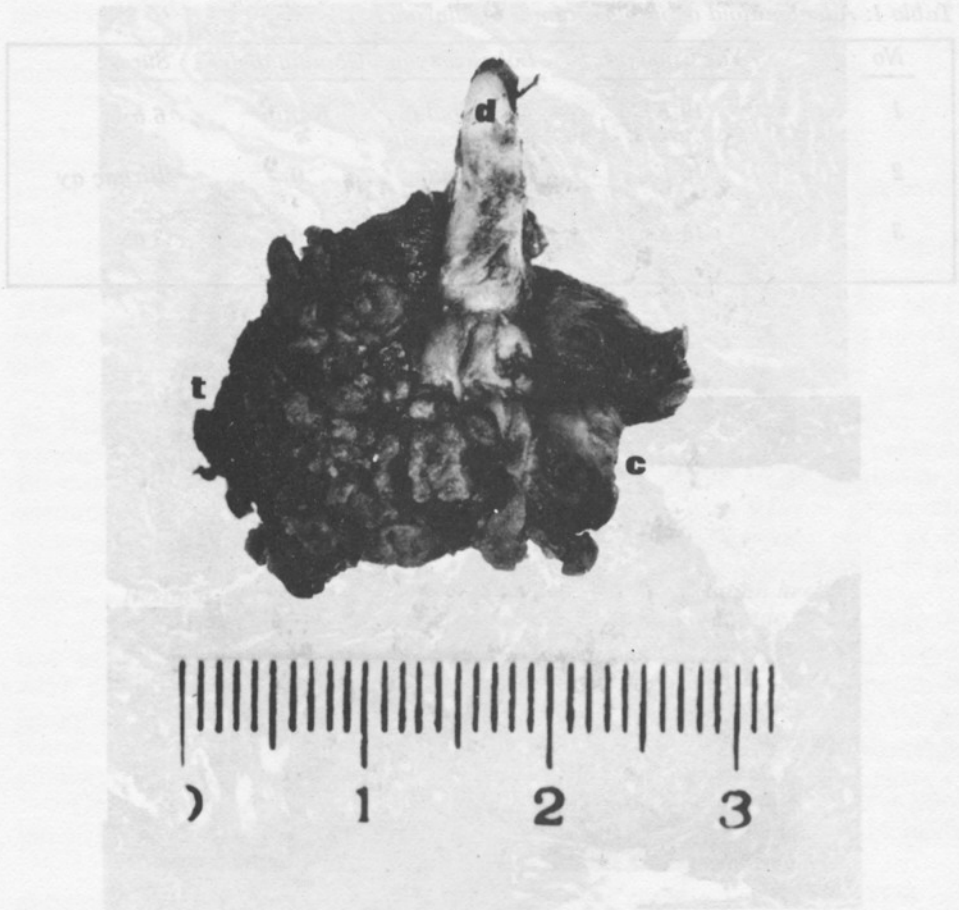
OLGU I: 189/73. 19 yaşında erkek. 6 ay önce altçene sağ 4 numaralı dişini güçlü ağrı nedeniyle çektirdikten sonra bu alanda başlayan ve simfiz yönünde gelişen bir şişlik yakınması ile dişhekimine başvurmuş. Dişhekimisi fakültemize gitmesi öğütlemiş.

Hastanın klinik muayenesinde, altçene sağ süt lateralinin persiste olduğu ve bu alanda bir şişlik bulunduğu görüldü. Ekspansif olarak büyümüş olan kitle krepitasyon veriyordu.

Radyolojik incelemede, sklerotik sınırlı litik bir lezyon ve kronu lezyon içinde gömük kanin dişi saptandı. Özellikle gömük dişin kronu çevresinde yoğunlaşan küçük kalsifikasyonlar vardı. Bu bulgularla bir dentigeröz kist olabileceği düşünülerek ameliyata alındı. Ameliyat ile 3 x 2 x 2 cm. boyutlarında düzenli kapsüllü bir oluşum enükle edildi.

Makroskopik incelemede, oluşumun içinde gömük bir kanin dişi saptandı (Resim 1). Özellikle kanin dişi çevresinde yoğunlaşan yumuşak dokular kesilirken kumlu izlenim verdi. Oluşumun öteki bölümü ise fibröz bir çeperdi ve içyüzü parlak sarımsı görünümdeydi.

Mikroskopik incelemede, çeper görünümündeki alanlardan yapılan kesitlerde içyüzü çok katlı yassı epitle döşeli bir kist saptandı. Kist epitelinden lumene



Resim 1. (Olgu 1). Gömük kanin dişiyle birlikte çıkarılmış oluşum. Dişin kronu oluşumun lumeni içindedir; kronun bir yanında tümöral proliferasyon, öte yanda ise kist çeperi izlenmektedir. (d= diş, t= tümör, c= kist).

doğru gelişen hücre proliferasyonları bulundu (Resim 2 ve 3). Bu proliferasyonlarda, ameloblastik hücrelerin oluşturduğu adenomatoid lobuluslar içinde halkalara ve serpilmiş stratum intermedium hücrelerine rastlandı. Adenomatoid lobuluslar arasında, birbirleriyle anastomozlar yapabilen ve diş mine epitelini anımsatan hücrelerden oluşan kordonlar vardı. Ayrıca, bazıları konsantrik lamellar yapıda kalsifikasyonlar ve bir alanda dentinoid madde görüldü.

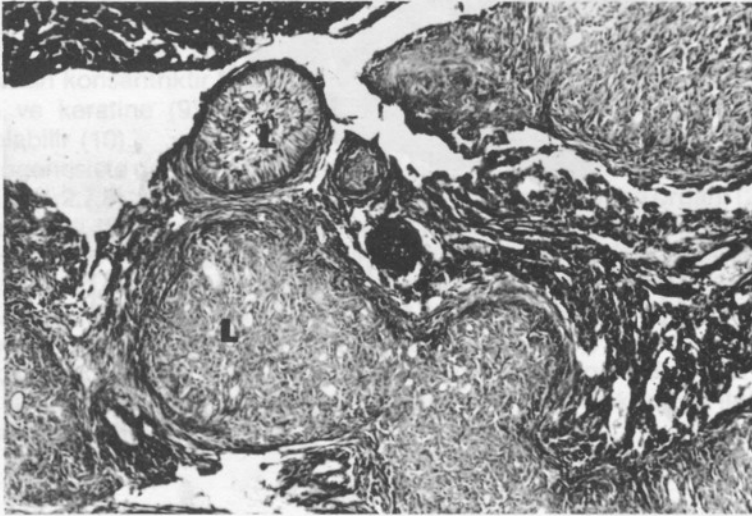
Histopatolojik tanı: Adenomatoid odontogen tümör.

OLGU 2: 1464/82. 16 yaşında erkek hasta. Altçene sağ tarafında birkaç aydır algıladığı ağrısız şişlik nedeniyle dişhekimine gitmiş, fakültemize gönderilmiş.

Klinik incelemede, kanin ve premolar dişler alanında hafif ekspansiyon yapan ve bu bölgedeki diş dizisini bozan oluşum saptandı. Radyolojik incelemede, kanin ve premolar dişler arasında, bu dişlerin köklerini iterek kendine üçgen biçiminde

Tablo 1: Adenomatoid odontogen tümör olgularımız

No	Yaş-Cinsiyet	Lokalizasyon	Gömülü dişler	Süre
1	19 E	Mandibula, sağ kanin diş	Kanin	6 ay
2	16 E	Mandibula, sağ kanin diş.	0	Birkaç ay
3	15 K	Maksilla, sol kanin diş	0	3 ay



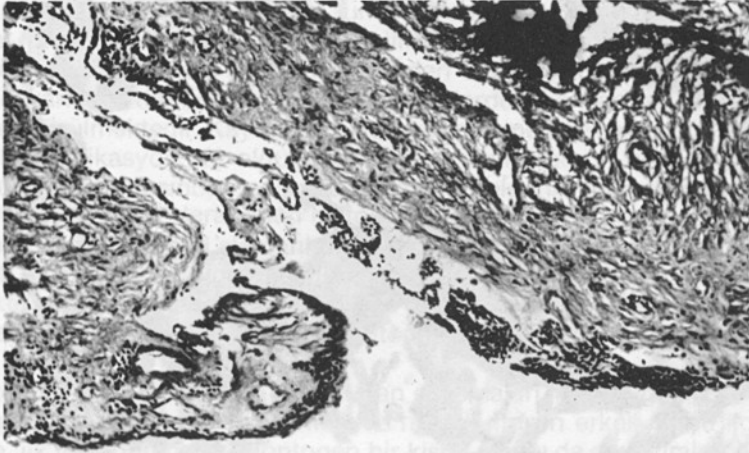
Resim 2. (Olgu 1). Tümör tarafından hazırlanan kesitlerde adenomatoid lobuluslar (L). Bir alanda, keratin içerdiği için, PAS (+) boyanmış küçük bir lobulus (PAS, x 100).

bir yer açmış olan litik lezyon saptandı. Lezyon içinde güçlükle seçilebilen küçük kalsifikasyonlar vardı. Kist ön tanısı ile enükle edilen oluşumun makroskopik incelemesinde, fibröz bir çeperin iç yüzünde bir alanda solid ve kolayca dağılan tümör saptandı.

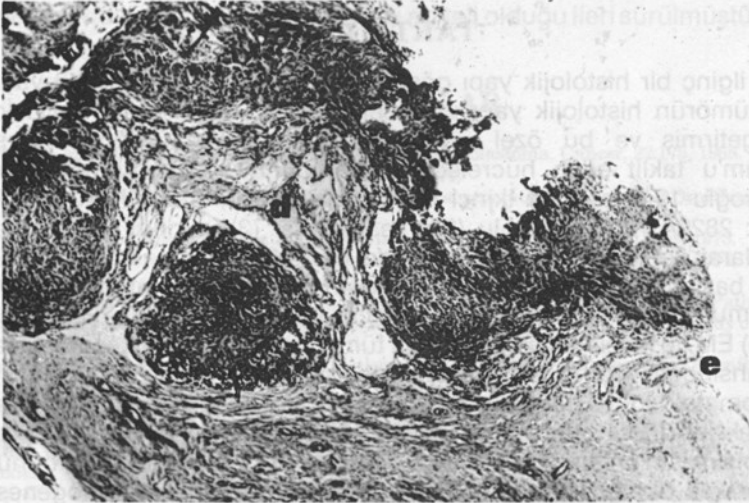
Mikroskopik incelemede, içyüzü çok katlı yassı epitel ile döşeli kist lumenine doğru gelişen ve adenomatoid lobuluslardan oluşan bir tümör bulundu (Resim 4). Lobuluslar içindeki lumenlerde eozinofil madde vardı (Resim 5). Kireçlenmeler küçük ve azdı.

Histopatolojik tanı: Adenomatoid odontogen tümör.

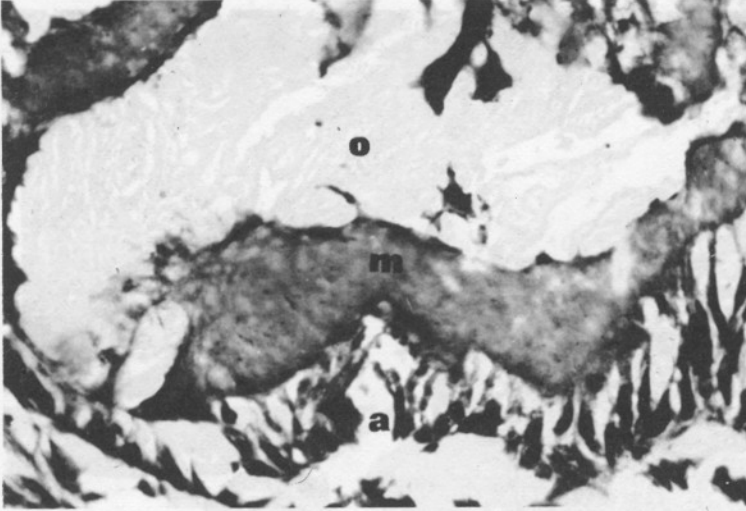
Olgu 3. 1345/84. 15 yaşında kız hasta. Üstçene sol yan kesici-kanin dişleri bölgesinde, dışa doğru kabarıklık oluşturan fındık büyüklüğünde (2 cm. çapında) bir oluşumdan şikayetle geldi. Miksoma ön tanısıyla enükle edilen düzenli kapsüllü tümörün 21 mm çapında olduğu görüldü. Mikroskopik inceleme, oluşumun



Resim 3. (Olgu 1). Oluşumun kist bölümünden hazırlanan kesitlerde fibröz çeperin içyüzünü döşeyen epitel hücrelerinde, dış mine epitelini anımsatan hücrelere diferansiye olan proliferasyon odakları (H. E X 80).



Resim 4. (Olgu 2). Bir yanda kist epitelini (e), öte yanda adenomatoid lobuluslar ve bunlar arasında dış mine epitelini hücrelerinden (d) oluşan kordonlar (H.E X 32).



Resim 5. (Olgu 2). Adenomatoid lobuluslarda saptanan ve ameloblastik hücrelerin (a) yaptığı lumen (o) içindeki eozinofil madde (m). (H.E X 500).

üzerini çok katlı yassı epitel örtmekteydi. Bunun altında görülen tümör, ilk iki olgumuzun özelliklerini taşıyordu.

Histopatolojik tanı: Adenomatoid odontogen tümör (periferik tip).

TARTIŞMA

AOT, ilginç bir histolojik yapı gösterir. 1964'de Tahsinoğlu (30) yayınladığı olgudaki tümörün histolojik yapısını incelerken ilk kez "adenomatoid lobulus" tanımını getirmiş ve bu özel görünümün ameloblastik hücrelerle stratum intermedium'u taklit eden hücrelerden oluştuğunu bildirmişti (Bu olgu 1974 Hacıhanefioğlu-19 tarafından ikinci kez yayınlanmıştır, İst.Tıp Fakültesi, Patoloji Biopsi No: 2829/64). Tahsinoğlu (30) ve Bhaskar (3), aynı yıl ve birbirlerinden habersiz olarak ileri sürdükleri görüşlerinde, tümörün dış mine epitelini taklit eden hücrelerle başladığını, öteki hücrelere diferansiyasyonun sonradan ortaya çıktığını savunmuşlardı. Tahsinoğlu (30) ndan 14 yıl sonra, 1978'de, Hatakeyama ve Suzuki (20) EM ile inceledikleri iki olguda tümüyle aynı bulguları saptamışlar ve bir bakıma Tahsinoğlu (30) nun görüşlerini değişik bir yöntemle doğrulamışlardır.

Adenomatoid lobuluslar içinde bulunan ve ameloblastik hücrelerin yaptıkları lumenlerdeki eozinofil madde üzerindeki çok yönlü araştırmalar, bu maddenin gerçek yapısını tam anlamıyla aydınlatamamıştır. Araştırmaların çoğu, bunun mine dokusu ile ilgili olduğu üzerinde durmuştur (17,21,27,29). Odontogenesiste ve odontogen tümörlerde belirgin biçimde gördüğümüz indüksiyon sisteminin işlevine göre, ameloblastların mine ya da mine matriksi yapılabilmesi için dentin/dentinoid gereklidir (31). Giasanti ve ark. (15) bazı olgulardaki kireçlenmelerden bir bölümünün düzensiz dentin olabileceğini savunmaktadırlar. Gerçekten

de ortamda dentinoid/dentin varsa, lumenlerdeki maddenin bozuk yapıda bir mine matriksi (preenamel) olduğu düşünülebilir. Olgularımızdan birincisinde saptadığımız dentinoid madde, bu konudaki görüşleri destekler niteliktedir.

Öte yandan, tümör içindeki kireçlenmelerden konsantrik lameller bir yapı içerenler görülmektedir. Kaynaklar bu tür kireçlenmelerin sement (5,9,13,15,30) ve distrofik kalsifikasyon (3) olduğu üzerinde durmaktadır. Lucas (21) konsantrik kireçlenmelerin ortasında degenere epitel hücrelerinin de varlığından söz etmiş, bu görüş Çöloğlu (9) tarafından histokimyasal olarak da kanıtlanmıştır.

Tümördeki hücre sel elemanların ve katı doku oluşmasının daha ileri dönemlere dek gelebileceği bir olguyu bildiren Dunlap ve Fritzen (12), AOT ile odontoma'yı birlikte bulmuşlar, bu oluşum için 3 ad önermişlerdir, adenoameloblastik odontoma, ameloblastik adenomatoïd odontoma ve odontogen adenomatoïd odontoma.

Literatürdeki istatistiksel değeri olan çalışmaları incelediğimizde, olgularımızın ikisinin de altçenede yerleşmesi ve hastalarımızın erkek oluşu ilginçtir. Öte yandan, ilk iki olgumuzda odontogen bir kistin varlığı da dikkatimizi çekmektedir. Bir odontogen kist epitelinden tümör çıkabileceği ya da odontogen bir tümörün sonradan kistleşebileceği klasik bilgilerimiz arasındadır (32). Kaynak yazılardaki bildirilerde de kistle birlikte olan AOT olgularına sık rastlanmıştır (4,5,8,13-18,21,18,34); o kadar ki Fahim ve ark. (13), AOT'un ilginç bir odontogen kist tipi olabileceğini bile ileri sürebilmişlerdir.

AOT'un uzun süre adenoameloblastoma adıyla tanımlanması, klinik hekimlerine ameloblastoma gibi davranacağı sanısını vermiştir. Gorlin ve Chaudhry (16), AOT ile ameloblastoma'yı kıyaslayarak farklı özelliklerini ortaya koymuşlardır. Sonraları yapılan AOT ile ilgili bildirilerde, ameloblastoma'nın tersine, AOT'un hemen hiç residiv yapmadığı ve ameloblastoma türlerinden biri olmadığı sık sık yinelenmiştir (2-5,8,13-18,22,31,32,35).

Üçüncü olgumuz ise kemik dışında, dişetinde oluşmuştu. Ender olarak görülen bu yerleşimde, tümör kökeninin dişeti epiteli olduğu ileri sürülmüştür (4,15,25).

KAYNAKLAR

- 1 - Abrams, A.M., Melrose, R.J. ve Howell, F.V. Adenoameloblastoma, *Cancer*, 22:175, 1968.
- 2 - Baden, E. Odontogenic tumors, *Pathol. Ann.* 6:475, 1971.
- 3 - Bhaskar, S.N. Adenoameloblastoma: Its histogenesis and report of 15 new cases, *J.Oral Surg. Anesth. Hosp. Dent.Serv.* 22: 218, 1964.
- 4 - Bhaskar, S.N. Synopsis of Oral Pathology. 4. Baskı, The CV Mosby Co., St.Louis, 1973.
- 5 - Bernier, J.L. ve Tiecke, R.W. Adenoameloblastoma: Report of 9 cases, *Oral Surg.* 9: 1304, 1956.
- 6 - Chambers, K.S. The adenoameloblastoma, *Br.J. Oral Surg.* 10: 310, 1973.
- 7 - Cina, M.T., Dahlin, D.G. ve Gores, R.J. Ameloblastic adenomatoid tumors, *Am.J.Clin.Pathol.* 39: 59, 1963.
- 8 - Courtney, R.M. ve Kerr, D.A. The odontogenic adenomatoid tumor. A comprehensive study of 20 news cases, *Oral Surg.* 39: 424, 1975.
- 9 - Çöloğlu, A.S. Odontogenesiste, Odontogen kistlerde ve tümörlerde Keratinleşmeler. Doçentlik tezi, İstanbul Üniversitesi, İstanbul, 1979.
- 10 - Çöloğlu, A.S. ve Tahsinoğlu, M. Odontogen tümörlerin bazı histo-kimyasal özellikleri. 10 vaka üzerine araştırma. TBTA V.Bilim Kongresi Kitabı (869), Ankara, 1975.
- 11 - Dreilbladt, H. Über das pseudoadenoma adamantinum. Inaugural dissertation, Berlin, 1907 (Tsankis ve ark. 35'den naklen).
- 12 - Dunlap, C.L. ve Fritzen, T.J. Cystic odontoma with concomitant adenoameloblastoma (adenoameloblastic odontoma), *Oral Surg.* 34: 450, 1972.
- 13 - Fahim, M.S., Elmofly, S.K. ve El-attar, A.A. Adenoameloblastoma: Report of three cases, *J.Oral Surg.* 27: 409, 1969.
- 14 - Gargiulo, E.A., Ziter, W.D., Mastrocola, R. ve Ballard, B.R.: Odontogenic adenomatoid tumor (adenoameloblastoma): Report of case and review of the literature, *J.Oral Surg.* 32: 286, 1974.
- 15 - Giansanti, J.S., Someren, A. ve Waldron, C.A. Odontogenic adenomatoid tumor (adenoameloblastoma).

Survey of 111 cases, Oral Surg. 30:69, 1970.

16- Gorlin, R.J. ve Chaudhry, A.P. Adenoameloblastoma, Oral Surg. 11: 762, 1958.

17- Gorlin, R.J., Chaudhry, A.P. ve Pindborg, J.J. Odontogenic tumors: Classification, histopathology and clinical behavior in man and domesticated animals, Cancer, 14: 101, 1961.

18- Gorlin, R.J., Meskin, L.H. ve Brodey, R. Odontogenic tumors in man and animals: Pathologic classification and clinical behavior - A review, Ann.N.Y.Acad.Sci. 108: 722, 1963.

19- Hachaneñoğlu, U. The adenomatoid odontogenic tumor, Oral Surg. 38: 65, 1974.

20- Hatakeyama, S. ve Suzuki, A. Ultrastructural study of adenomatoid odontogenic tumor, J.Oral Pathol.7:295, 1978.

21- Lucas, R.B. A tumor of enamel organ epithelium, Oral Surg. 10: 652, 1957.

22- Milobsky, L., Milobsky, S.A. ve Miller, G.M. Adenomatoid odontogenic tumor (adenoameloblastoma), Oral Surg. 40: 681, 1975.

23- Mori, M., Tamura, K. ve Kawakatsu, K. Histochemical observations of enzymes in adenoameloblastoma, Oral Surg. 30: 659, 1970.

24- Panzoni, E. ve Savastano, C. Tumore odontogeno adenomatoide (adenoameloblastoma). Revisione della letteratura e presentazione di un caso, Riv.It. Stomatol. 6:5, 1979.

25- Philipsen, H.P. ve Birn, H. The adenomatoid odontogenic tumor, Acta pathol.microbiol.scand. 75: 375, 1969.

26- Seno, Y., Nakagawa, H., Ono, S., Yamamoto, Y., Hirose, Y., Ii, W. ve Utsumi, N. Adenomatoid ameloblastoma, J.Jap.Stomatol.Soc. 25: 86, 1976.

27- Spouge, J.D. The adenoameloblastoma, Oral Surg. 23: 470, 1967.

28- Stafne, E.C. Epithelial tumors associated with developmental cysts of the maxilla. A report of three cases, Oral Surg. 1: 887, 1948.

29- Swimley, D.C., Jacoby, J.K. ve Kolodny, S.C. Adenoameloblastoma: Report of case, J.Oral Surg. 28: 133, 1970.

30- Tahsinoğlu, M. Vasküler adenoameloblastoma, Odonto-Stomatol. (İstanbul), 3: 15, 1964.

31- Tahsinoğlu, M. Odontogenic tumors, Dişh. Fak.Derg. (İstanbul), 14: 87, 1980.

32- Tahsinoğlu, M., Çöloğlu, A.S. ve Erseven, G.: Odontogen Tümörler. İÜ Dişhekimliği Fak.Yay. 35, Bozak Matbaası, İstanbul, 1981.

33- Tchertkoff, V., Daino, J.A. ve Ehrenreich, T. Ameloblastic adenomatoid tumor (adenoameloblastoma), Oral Surg. 27: 72, 1969.

34- Thoma, K.H. Adenoameloblastoma, Oral Surg. 8: 441, 1955.

35- Tsaknis, P.J., Carpenter, W.M. ve Shade, N.L. Odontogenic adenomatoid tumor, Report of case and review of the literature, J.Oral Surg. 35: 146, 1977.