

## تومور ادنتوژنیک کیستیک کلسیفیه پیگمانته مرتبط با ادونتوما: گزارش مورد

دکتر غلامرضا جهانشاهی\*، دکتر سید حسین طباطبایی اردکانی<sup>۱</sup>

### چکیده

**مقدمه:** ضایعات ادنتوژنیک داخل استخوانی پیگمانته، ضایعات نادری هستند که تاکنون در منابع انگلیسی زبان ۴۷ مورد از آنها گزارش شده است. در این میان Pigmented calcifying cystic odontogenic tumor شایع‌ترین نوع این ضایعات است که پیشتر تحت عنوان Calcifying odontogenic cyst شناخته می‌شد و تا به حال ۲۰ مورد از آن گزارش شده است.

**گزارش مورد:** بیمار یک مرد نوزده ساله دارای یک تورم استخوانی دردناک در ناحیه قدام فک بالا در سمت راست با گسترش به ریم اوربیتال، مشکلات بینایی و سردرد بود. با توجه به نمای رادیوگرافیک، بررسی میکروسکوپی، رنگ‌آمیزی اختصاصی و ایمونوهیستوشیمیایی، تشخیص Pigmented calcifying cystic odontogenic tumor associated with odontoma داده شد.

**نتیجه‌گیری:** با توجه به خاستگاه مشترک ملانوسیت‌ها و دنتال لامینا از نئورال کرست، حضور ملانوسیت‌ها و ملانین در ضایعه اخیر قابل توجیه است؛ هر چند تاکنون نقشی برای آن در رفتار بیولوژیک و پیش‌آگهی مطرح نشده است. این مورد نیز به موارد نادر ضایعات ادنتوژنیک پیگمانته گزارش شده، اضافه خواهد شد.

**کلید واژه‌ها:** تومور ادنتوژنیک کیستیک کلسیفیه، ادونتوما، ملانوسیت

\* دانشیار بخش آسیب‌شناسی دهان، دانشکده دندان‌پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی اصفهان (مؤلف مسؤول)  
Jahanshahi @ dnt.Mui.ac.ir

۱: دستیار تخصصی بخش آسیب‌شناسی دهان، دانشکده دندان‌پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی اصفهان

این مقاله در تاریخ ۸۷/۱۰/۱ به دفتر مجله رسیده، در تاریخ ۸۷/۱۱/۱۷ اصلاح شده و در تاریخ ۸۷/۱۲/۲۰ تأیید گردیده است.

مجله دانشکده دندان‌پزشکی اصفهان  
۱۳۸۸؛ ۵(۱): ۴۹ تا ۵۲

## مقدمه

تکمالی ادنتوژنیک به نسبت غیر شایع است [۱] که اولین بار توسط Gorlin [۲] در سال ۱۹۶۴ معرفی شد. در آخرین طبقه‌بندی ارایه شده در سال ۲۰۰۵، سازمان جهانی بهداشت (WHO) این ضایعه را به عنوان یک نئوپلاسم ادنتوژنیک خوش‌خیم و اغلب با ظاهر کیست مانند تحت عنوان Calcifying cystic odontogenic tumor (CCOT) معرفی کرده است. فرم کیستیک این ضایعه ۹۸-۸۶ درصد موارد آن را تشکیل می‌دهد که ممکن است به صورت داخل یا خارج استخوانی بروز نماید [۱]. انواع فرم کیستیک این ضایعه عبارتند از Cystic proliferative/، Cystic nonproliferative، Odontoma-associated و Ameloblastomatous [۳].

در ۲۰ درصد موارد، CCOT ممکن است همراه با یک ادونتوم باشد [۱]. بر سر این که آیا CCOT مرتبط با ادونتوم (CCOTaO) به عنوان یک نوع مجزا از CCOT که تا حدودی دارای پتانسیل پرولیفراتیو می‌باشد [۴] تلقی شود، یا تنها به عنوان یک زیر گروه از نوع کیستیک غیر نئوپلاستیک آن [۳] در نظر گرفته شود، هنوز توافقی وجود ندارد.

۱. Hirshberg در ۱۹۹۴ چندین احتمال برای پاتوژنز CCOTaO پیشنهاد نمود:

۲. مجاورت همزمان یک CCOT و یک ادونتوما به صورت اتفاقی.

۳. ایجاد ادونتوم از اپیتلیوم ادنتوژنیک CCOT به طور ثانویه. تشکیل یک کیست در جزء اپی‌تلیالی یک ادونتوما کامپاند و به احتمال کمتر کمپلکس که سرانجام ادونتوم را در بر می‌گیرد. باید خاطر نشان نمود که ادونتوما، خود نیز ممکن است در ۱۸-۱۱ درصد موارد حاوی سلول‌های شبیحی باشد. آنچه که باعث تشخیص یک CCOTaO از یک ادونتوما همراه با سلول‌های شبیحی می‌شود، حضور یک کیست مفروش از اپی‌تلیوم ادنتوژنیک در CCOTaO است [۴].

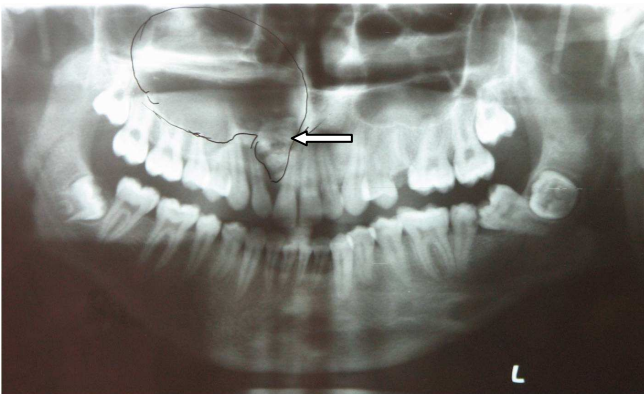
تاکنون بالغ بر ۴۷ نمونه ضایعات ادنتوژنیک پیگمانته در مقالات انگلیسی زبان منتشر شده است که در این میان شایع‌ترین آنها CCOT (شامل ۲۰ مورد) است [۵].

در این مقاله به گزارش یک مورد نادر از CCOTaO حاوی پیگمانتاسیون ملانین پرداخته، مراحل تشخیص آن ذکر می‌شود.

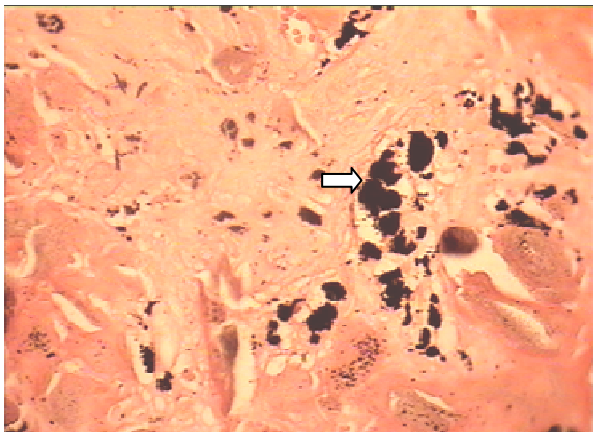
## گزارش مورد

بیمار مردی ۱۹ ساله که از یک سال قبل متوجه تورم بدون دردی در ناحیه مخاط آلوئولر سمت باکال دندان‌های ۱ و ۲ شده بود. در طی این مدت تنها از درمان‌های دارویی استفاده نموده بود. به تازگی از یک ماه قبل، یک تورم استخوانی دردناک در ناحیه قدام فک بالا در سمت راست با گسترش به ریم اوربیتال، مشکلات بینایی و سردرد ایجاد شده بود. بیمار مشکل دیگری نداشت و دندان‌های مجاور زنده بودند.

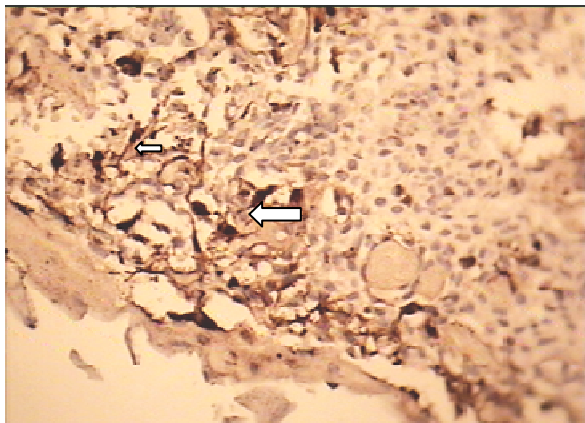
در رادیوگرافی پانورامیک، رادیولونسی تک حفره‌ای با حدود به نسبت مشخص در ناحیه دندان‌های قدامی سمت راست ماگزایلا بدون شواهدی از تحلیل ریشه دیده شد که به داخل سینوس ماگزایلاری توسعه یافته بود. تعدادی ساختمان‌های کوچک با رادیودانسیته مشابه دندان و نیز کلسیفیکاسیون‌های با حدود نامنظم در بین ریشه دندان‌های مذکور دیده می‌شد (شکل ۱). با توجه به این نمای رادیوگرافیک، به ترتیب اولویت تشخیص‌های افتراقی زیر مطرح گردید. ۱. سیست دانتی ژور مرتبط با ادونتوم؛ ۲. CCOTaO؛ ۳. آملوبلاستیک فیبرو ادونتوما و ۴. ادونتوآملوبلاستوما.



شکل ۱. رادیوگرافی پانورامیک: یک رادیولوسنس تک حفره‌ای با حدود به نسبت مشخص بین ریشه دندان‌های ۱ و ۲ حاوی تعدادی ساختمان‌های کوچک شبه دندانی (پیکان) با گسترش به داخل سینوس ماگزایلاری



شکل ۳. واکنش مثبت مواد شبیه ملانین- پیکان (رنگ آمیزی با masson- Fontana بزرگ‌نمایی 40×)



شکل ۴. حضور ملانوسیت‌های دندریتیک- پیکان (رنگ آمیزی ایمونوهیستوشیمیایی با پروتئین S 100، بزرگ‌نمایی 40×)

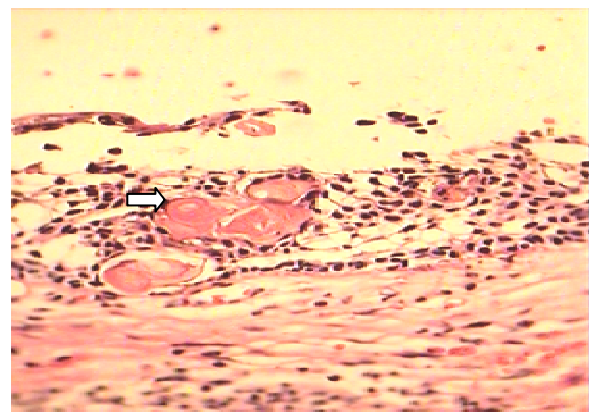
### بحث

در مقایسه مورد حاضر با بررسی‌های انجام شده توسط Hirshberg و همکاران [۴] بر روی ۵۲ نمونه CCOTaO مشخص شد که ناحیه مبتلا در نمونه حاضر مطابق با شایع‌ترین ناحیه گزارش شده برای این ضایعات، یعنی قدام ماگیلای بود. سن بیمار نیز موافق با گزارش‌های ارایه شده می‌باشد که در ۶۰ درصد موارد در دهه دوم زندگی گزارش شده است. از نظر تظاهرات بالینی نیز در نمونه حاضر همانند بررسی مذکور، سمپتوم اصلی تورم (در ۵۲ درصد موارد) بود. نمای رادیوگرافیک مورد حاضر نیز همانند اغلب گزارش‌های موجود به صورت ضایعه مخلوط رادیولوسنت- رادیوپاک با حدود مشخص (۸۰ درصد موارد) بود؛ هر چند مورد حاضر از نظر جنسیت (مذکر) با اغلب نمونه‌های بررسی شده در پژوهش مذکور (نسبت مرد به

ضایعه با روش Total excision از سینوس ماگیلاری خارج شد. در بررسی گفوس نمونه مذکور، یک ساختمان کیستیک به ابعاد  $1/4 \times 4 \times 4/5$  سانتی‌متر به رنگ کرم قهوه‌ای با سطح نامنظم و ضخیم شدگی‌های گرانولر کانونی قابل مشاهده بود. ۴ قطعه کوچک شبه دندانی در دیواره کیست به چشم می‌خورد.

در بررسی میکروسکوپی نمونه، ساختمان کیستیک با حدود مشخص دارای یک کپسول فیبروزه مفروش از اپی‌تلیوم ادنتوژنیک با ویژگی‌های آملوبلاستومایی دارای سلول‌های شبیحی درشت و فاقد هسته با سیتوپلاسم ائوزینوفیلیک وسیع قابل مشاهده بود (شکل ۲). رسوبات قهوه‌ای رنگ شبیه ملانین به صورت پراکنده در مجاورت سلول‌های شبیحی دیده می‌شد. حضور رسوبات مذکور در این ضایعه ادنتوژنیک ویژگی جالب توجهی بود که ما را به بررسی بیشتر وا داشت. در بررسی میکروسکوپی با مشاهده ساختمان‌های شبه دندانی کوچک، تشخیص ادونتومای کامپاند داده شد. جهت تعیین ماهیت رسوبات شبه ملانین، رنگ آمیزی Fontana-masson انجام و واکنش مثبت مواد شبیه ملانین ملاحظه شد (شکل ۳). همچنین با استفاده از رنگ آمیزی ایمونوهیستوشیمیایی (IHC) با پروتئین S100، حضور ملانوسیت‌های دندریتیک در اپیتلیوم مذکور محرز گردید (شکل ۴).

به این ترتیب در نهایت برای نمونه مذکور تشخیص Pigmented CCOT associated with odontoma تعیین شد.



شکل ۲. نمای هیستوپاتولوژیک یک ساختمان کیستیک مفروش از اپی‌تلیوم با ویژگی‌های آملوبلاستومایی دارای سلول‌های شبیحی (پیکان)؛ (رنگ آمیزی H & E با بزرگ‌نمایی 40×)

زن برابر ۱ به ۱/۹) متفاوت بود. البته این مورد از نظر آماری قابل مقایسه نیست.

ادنتومای همراه با CCOT در مورد حاضر نیز همانند اغلب موارد گزارش شده از نوع کامپاند بود. با توجه به تشابه شایع‌ترین سن بروز و شایع‌ترین محل وقوع CCOTaO و ادنتوما، برخی پژوهشگران CCOTaO را به عنوان واریانته از ادنتوما در نظر گرفته، نام Compound cyst-like ghost cell odontoma را برای آن مطرح کرده‌اند. پیشنهاد شده است که در این حالت جزء اپی‌تلیالی یک ادنتومای کامپاند و به احتمال کمتر ادنتومای کمپلکس در مرحله خاصی از تکامل آن یک پوشش کیستیک را تشکیل می‌دهد که سرانجام ادنتوم را در بر می‌گیرد[۴]. اما نکته متفاوت در این پژوهش این است که در نمونه حاضر، ساختارهای ادنتومی در دیواره کیست و نه در مرکز آن حضور داشتند. همچنین با توجه به مشاهده گسترش ضایعه حاضر به سینوس ماگزیلاری و این که ادنتوما هرگز دارای چنین پتانسیلی نمی‌باشد[۱]، احتمال این پاتوژنز حداقل برای این نمونه قابل بحث می‌باشد. با توجه به این که وقوع همزمان CCOT و ادنتومای کامپاند به صورت اتفاقی بسیار نادر است، در حالی که وقوع CCOTaO به نسبت رایج‌تر است[۴]، احتمال این فرضیه نیز بسیار کاهش می‌یابد.

با توجه به سابقه یک ساله تورم در ناحیه مخاط آلوتولر دندان‌های ۱ و ۲ و نیز حضور ضایعات شبه ادنتومی در دیواره کیست موجود در این ناحیه، احتمال ایجاد ادنتوم از اپی‌تلیوم دنتوژنیک یک CCOT قبلی و ایجاد یک CCOTaO به طور ثانویه در نمونه حاضر بیشتر قابل توجه می‌باشد.

در رابطه با حضور پیگمانتاسیون ملانین در ضایعات ادنتوژنیک، تاکنون اغلب نمونه‌ها در بیماران سیاهپوست یا آسیایی گزارش شده است که احتمال دارد دلالت بر نقش پیگمانتاسیون نژادی باشد. از آن جا که ادنتوژنیز فرایند پیچیده‌ای است که در نتیجه اثر متقابل اپی‌تلیوم ادنتوژنیک و اکتومزانسیم منشأ گرفته از نورال کرست انجام می‌شود، با توجه به خاستگاه مشترک ملانوسیت‌ها و دنتال لامینا از نورال کرست، حضور ملانوسیت‌ها در ضایعات ادنتوژنیک منشأ گرفته از دنتال لامینا تعجب‌انگیز نمی‌باشد. همچنین محتمل است که بخشی از بافت‌های ضایعه ادنتوژنیک در موارد خاص، پتانسیل تمایز نورواکتودرمال را داشته باشند.

منطقی است تصور کنیم که احتمال می‌رود تعداد ملانوسیت‌ها و نیز فعالیت آنها در این ضایعات با پیگمانتاسیون نژادی رابطه داشته باشد[۶]، چنانچه بیمار مورد بحث نیز به صورت فیزیولوژیک دارای یک پوست به نسبت تیره بود. به این ترتیب حضور ملانین در ضایعه، ویژگی هیستوپاتولوژیک خاصی برای CCOT نمی‌باشد و حداقل تا کنون Pigmented CCOT را به عنوان واریانته از CCOT در نظر نگرفته‌اند[۵].

### نتیجه‌گیری

پژوهشگران تا کنون در رابطه با تأثیر حضور ملانوسیت‌ها در CCOTaO بر رفتار بیولوژیک و پیش‌آگهی ضایعه نقشی قابل نشده‌اند و این یافته فقط ارزش آکادمیک دارد. این نمونه را نیز می‌توان به لیست موارد نادر تشخیص داده شده اضافه کرد.

### References

1. Neville B, Damm D, Allen C, Bouquot J. Oral and maxillofacial pathology. 3<sup>rd</sup> ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 2008. p. 695-7.
2. Cawson RA, Speight P, Binnie WH, Wright J. Lucas's Pathology of Tumors of the Oral Tissues. 5<sup>th</sup> ed. London: Churchill Livingstone; 1999. p. 59-61.
3. Gnepp DR. Diagnostic Surgical Pathology of the Head and Neck. 1st ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 2001. p. 640.
4. Hirshberg A, Kaplan I, Buchner A. Calcifying odontogenic cyst associated with odontoma: a possible separate entity (odontocalcifying odontogenic cyst). J Oral Maxillofac Surg 1994; 52(6): 555-8.
5. Han PP, Nagatsuka H, Siar CH, Tsujigiwa H, Gunduz M, Tamamura R, et al. A pigmented calcifying cystic odontogenic tumor associated with compound odontoma: a case report and review of literature. Head Face Med 2007; 3: 35.
6. Lawson W, Abaci IF, Zak FG. Studies on melanocytes. V. The presence of melanocytes in the human dental primordium: an explanation for pigmented lesions of the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1976; 42(3): 375-80.

## A pigmented calcifying cystic odontogenic tumor associated with odontoma: A case report

Gholamreza Jahanshahi\*, Sayed Hossein Tabatabaei Ardakani

### Abstract

**Introduction:** *Pigmented intraosseous odontogenic lesions are rare, with only 47 reported cases in the English literature. Among them, pigmented calcifying cystic odontogenic tumor, formerly known as calcifying odontogenic cyst, is the most common lesion with 20 reported cases.*

**Case Report:** *The patient was a 19-year-old man. He had a bony, tender expansion in anterior right maxillary region extended to orbital rim with visual complaints and unilateral headache. Considering radiographic appearance, microscopic study, special and immunohistochemical staining, a diagnosis of pigmented calcifying cystic odontogenic tumor associated with odontoma was rendered.*

**Conclusion:** *Due to the same neural crest origin for melanocytes and dental lamina, the presence of melanocytes and melanin in this lesion is accountable. However, till now, no biologic behavioral and prognostic role has been considered for it. This case will add to rare reported cases of pigmented odontogenic lesions.*

**Key words:** *Pigmented calcifying cystic odontogenic tumor, Odontoma, Melanocyte*

**Received:** 21 Dec, 2008    **Accepted:** 10 Mar, 2009

**Address:** DDS; Associate professor, Department of oral and Maxillofacial Pathology, School of dentistry, Isfahan University of Medical Sciences, Isfahan, Iran.

**E-mail:** Jahanshahi @ dnt.Mui.ac.ir

Journal of Isfahan Dental School 2009; 5(1).