

Recidiva di ameloblastoma della mandibola: descrizione di un caso clinico

Mandibular ameloblastoma recurrence: a case report

L.C. Clauser^a, G. Elia^a, V. Candotto^a, R. Gafà^b, M. Galié^{a,*}

^a Azienda Ospedaliero-Universitaria Sant'Anna di Ferrara, Dipartimento di Chirurgie Specialistiche, Reparto di Chirurgia Cranio-Maxillo-Facciale, Centro di Riferimento per le Anomalie Cranio-Maxillo-Facciali Rare

^b Azienda Ospedaliero-Universitaria Sant'Anna di Ferrara, Istituto di Anatomia Patologica

Ricevuto il
27 giugno 2014
Accettato il
8 gennaio 2015

*Autore di riferimento
Manlio Galié
glm@unife.it

RIASSUNTO

OBIETTIVI. Presentare un caso di ameloblastoma mandibolare trattato chirurgicamente con resezione settoriale a box e contemporaneo rinforzo con placca in titanio.

MATERIALI E METODI. Viene descritto un caso di recidiva di ameloblastoma mandibolare trattato presso il reparto di Chirurgia Cranio-Maxillo-Facciale dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Sant'Anna di Ferrara. L'intervento di asportazione radicale della neoformazione e rinforzo mandibolare con placca in titanio è stato programmato dopo accurato studio radiografico utilizzando la tecnica TC Dental Scan.

RISULTATI E CONCLUSIONI. La chirurgia è il trattamento di scelta nell'ameloblastoma. Può essere conservativa o radicale. Il primo approccio chirurgico è in genere conservativo, rispettando comunque il principio di radicalità in limiti ossei integri. L'ameloblastoma è un tumore odonto-

geno benigno, localmente invasivo e con un alto tasso di recidiva se non operato adeguatamente.

PAROLE CHIAVE

- ▶ Ameloblastoma della mandibola
- ▶ Tumore odontogeno
- ▶ Chirurgia orale
- ▶ Osteotomia mandibolare
- ▶ Chirurgia piezoelettrica

ABSTRACT

OBJECTIVES. *The aim of this paper is to present a rare case of mandibular ameloblastoma treated by segmental bony box resection and mandibular reinforcement obtained with rigid fixation using a titanium mini plate.*

MATERIALS AND METHODS. *A case of mandibular ameloblastoma recurrence is described, which was treated at the Cranio-Maxillofacial Surgery of the University Hospital St. Anna, Ferrara, Italy. A radical excision and reinforcement with mandibular titanium plate*

was planned after an accurate study with CT Dental Scan, that confirmed the recurrence and showed the extension of the tumour.

RESULTS AND CONCLUSIONS. In man-

dibular ameloblastoma the recurrence rate is high if not properly treated. This tumour is a benign, locally invasive odontogenic lesion with a high rate of recurrence in the long term, if associated with an inadequate surgical approach.

KEY WORDS

- ▶ Mandibular ameloblastoma
- ▶ Odontogenic tumour
- ▶ Oral surgery
- ▶ Surgical treatment
- ▶ Piezosurgery

1. INTRODUZIONE

L'ameloblastoma, anche conosciuto come amantadinoma, è uno dei tumori odontogeni frequenti (11% dei tumori odontogeni) e colpisce prevalentemente fra la terza e la quinta decade di vita, senza predilezione di genere.

Si presenta con una frequenza significativamente superiore nella mandibola (90%) con particolare preferenza per l'angolo mandibolare e per l'area del terzo molare inferiore [1].

Secondo la classificazione della World Health Organization l'ameloblastoma si distingue in tipo solido, multicistico, extraosseo, periferico, desmoplastico e unicistico [2,3]. L'ameloblastoma unicistico è una forma di tumore di origine odontogena rara, benigna. Le lesioni sono spesso collegate a un elemento dentario incluso e mostrano istologicamente un classico epitelio di rivestimento della cavità cistica di tipo ameloblastico. Questo tipo di epitelio si contraddistingue per la presenza di cellule basali ipercromatiche con palizzata periferica e polarizzazione nucleare.

Nella variante luminale non c'è infiltrazione del tumore nella parete fibrosa. L'estensione endoluminale può verificarsi e consiste in una proliferazione di cellule epiteliali basali disposte in filamenti anastomotici (variante endoluminale).

Nella variante murale la parete cistica è

infiltrata da epitelio ameloblastico. In entrambe le varianti il pleomorfismo cellulare è raro e la conta mitotica è bassa.

Si tratta di una forma di neoplasia benigna che non metastatizza ma tende a espandersi all'interno della corticale ossea deformandola e creando sintomi quali tumefazione e dolore dei tessuti perilesionali, asimmetria del volto con disturbi anche funzionali [4].

All'inizio è spesso asintomatico e diagnosticato casualmente in corso di indagini radiologiche di routine. L'esame obiettivo endorale ed extraorale può risultare assolutamente negativo.

L'approccio ideale dell'ameloblastoma dovrebbe: 1) minimizzare la recidiva, 2) ripristinare la funzione, 3) ripristinare l'aspetto originario soprattutto nei casi in cui si tratta di una lesione essenzialmente benigna, 4) assicurare una morbilità minima qualora vi fosse la necessità di avere un sito donatore.

Il trattamento di tali neoplasie rimane oggetto di discussione a causa del loro comportamento localmente aggressivo e dell'alto tasso di recidiva dopo trattamento inadeguato. L'obiettivo terapeutico è il conseguimento di un'escissione completa della lesione con il minor tasso possibile di morbilità. In centri dove sono disponibili esperienza chirurgica e cooperazione tra chirurghi maxillofaciali e chirurghi ricostruttivi, la resezione segmentaria con ricostruzione mediante

lembo osseo vascolarizzato si avvicina a soddisfare questi requisiti [5].

Viene riportato un caso di ameloblastoma mandibolare trattato presso il reparto di Chirurgia Cranio-Maxillo-Facciale dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Sant'Anna di Ferrara. Prima del trattamento chirurgico è stato ottenuto il consenso informato da parte del paziente.

2. MATERIALI E METODI

2.1 DESCRIZIONE DEL CASO

Nel giugno 2011 un paziente maschio di anni 51 si presentava presso altra struttura per la comparsa di una tumefazione in corrispondenza del fornice vestibolare inferiore di destra (fig. 1).

Si eseguivano accertamenti radiografici tra cui radiografia ortopantomica e CT Dental Scan (fig. 2a,b) che evidenziavano la presenza di una neoformazione di aspetto rotondeggiante a margini netti in corrispondenza del corpo mandibolare di destra.

Si programmava l'intervento di asportazione della neoformazione con successivo esame istologico. Il paziente veniva sottoposto a intervento nel settembre 2011.

Il referto istologico poneva la seguente diagnosi: "Quadro morfologico riferibile ad ameloblastoma; la lesione raggiunge i margini di escissione". Si programmava follow-up clinico e radiologico ogni 6 mesi. Una radiografia ortopantomica



Fig. 1
Immagine clinica
preoperatoria

eseguita nel giugno 2013 evidenziava recidiva della neoformazione.

Nel luglio 2013 il paziente si presentava presso la Chirurgia Cranio-Maxillo-Facciale dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Sant'Anna di Ferrara. Si richiedeva TC Dental Scan di controllo per confermare la verosimile recidiva e l'estensione della neoformazione. Si programmava l'intervento di asportazione radicale della neoformazione e rinforzo mandibolare con placca in titanio.

2.2 TRATTAMENTO

L'intervento eseguito in narcosi prevedeva: ampia incisione mucosa dal trigono

retromolare fino alla regione incisiva, scheletrizzazione del corpo mandibolare inclusa la mucosa di rivestimento della corticale linguale, repere del nervo alveolare inferiore di destra all'uscita dal forame che appariva in stretta connessione con la parete cistica dell'ameloblastoma. In trasparenza si osservava deficit osseo del diametro di circa 2,0 cm e di colorito blu scuro.

Si procedeva con l'estrazione dell'elemento 4.5. Mediante chirurgia piezoelettrica (fig. 3) si eseguiva osteotomia mandibolare a box che comprendeva l'elemento dentario 4.6, l'alveolo di 4.5 e la neoformazione compresa tra la cor-

ticale vestibolare e la corticale linguale (fig. 4). Il nervo alveolare inferiore integro veniva isolato e dislocato in basso e non risultava interessato dalla neoformazione rimasta integra nel box osseo. Con apposita fresa si rimodellavano i bordi ossei mandibolari (fig. 5). Infine il corpo mandibolare veniva rinforzato mediante posizionamento di placca mandibolare a quattro viti e colla di fibrina (fig. 6). La sutura a punti staccati completava l'intervento (fig. 7).

Il box osseo (fig. 8a,b) inviato per l'esame istologico veniva descritto macroscopicamente come: "Segmento osseo mandibolare di cm 2 x 1,2 x 1,2 inglobante dente e nel contesto del quale si reperta neoformazione cistica di cm 1 x 1. Margini di resezione liberi da malattia".

Microscopicamente si evidenziava presenza di: "Epitelio di rivestimento della cavità cistica con isole di cellule ameloblastiche compatibile con diagnosi di ameloblastoma unicistico" (fig. 9).

Il decorso postoperatorio è stato regolare. Dopo 12 giorni dall'intervento si eseguiva la rimozione dei punti di sutura, senza segni di deiscenza. Non si evidenziavano gravi alterazioni della sensibilità del nervo alveolare inferiore eccetto una lieve ipoestesia, risoltasi in circa 3 mesi.

Ai controlli radiografici a distanza di 12

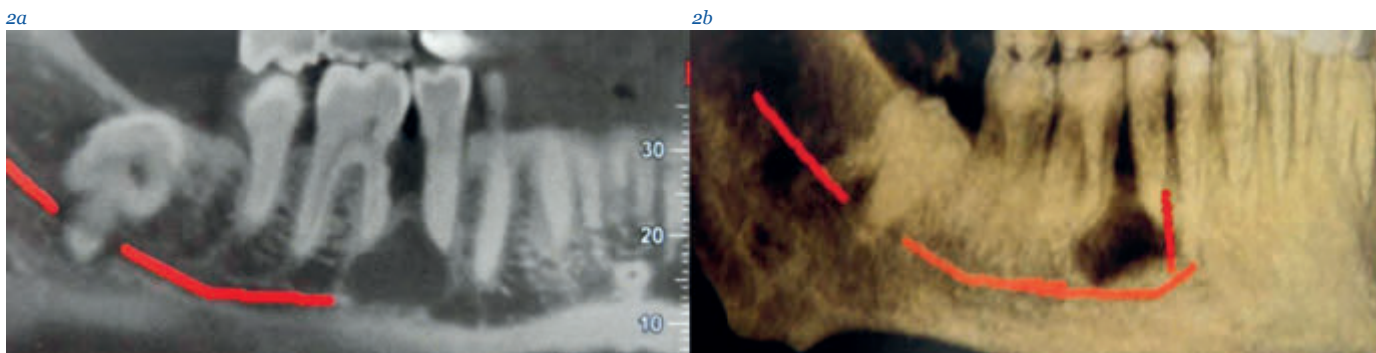


Fig. 2a,b a) TC Dental Scan che mostra il decorso del nervo alveolare inferiore. b) Lesione mandibolare in prossimità degli apici degli elementi 4.5 e 4.6

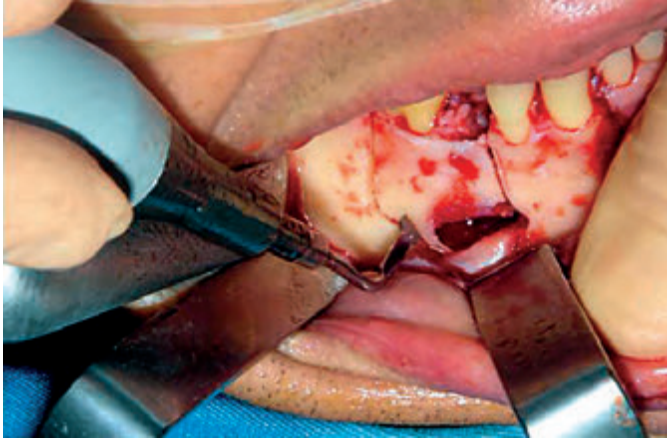


Fig. 3 Osteotomia con chirurgia piezoelettrica in margini ossei integri



Fig. 4 Rimozione dell'ameloblastoma in box con tessuto osseo ed elemento 4.6



Fig. 5 Cavità residua dopo la resezione

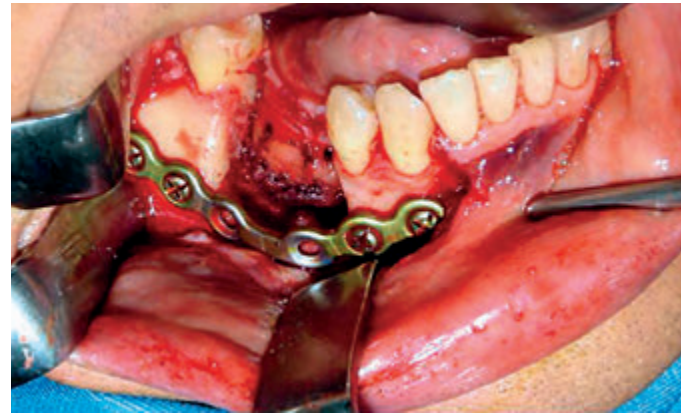


Fig. 6 Rinforzo della linea mandibolare con applicazione di placca in titanio, che sarà rimossa dopo 12 mesi circa. In seguito, un innesto osseo della cresta iliaca con impianti osteointegrati completerà il recupero odontoprotesico



Fig. 7 Sutura del lembo mucoperiosteo a punti staccati



Fig. 8a,b a) Dettaglio dell'elemento 4.5.
b) Blocco osseo con elemento 4.6 e ameloblastoma

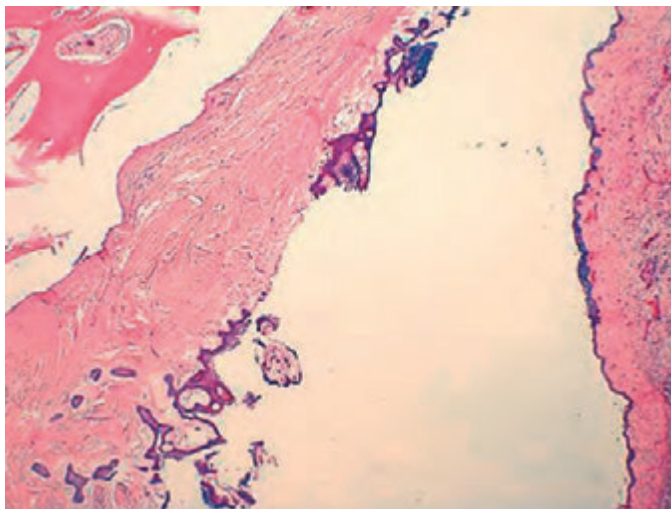


Fig. 9
Epitelio di rivestimento della cavità cistica con isole di cellule ameloblastiche

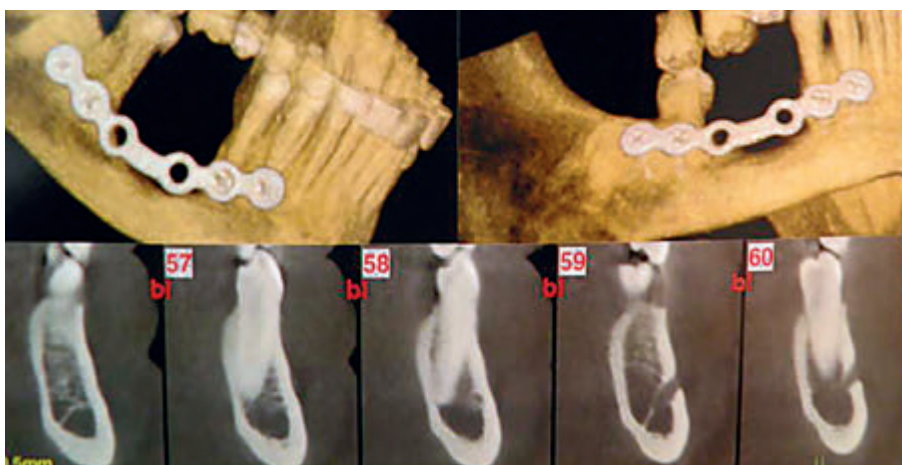


Fig. 10 Guarigione clinica e radiografica con controllo TC Dental Scan a distanza di 12 mesi

mesi dall'intervento non si osservavano segni di recidiva (fig. 10). Seguiva follow-up clinico-radiologico. In seguito si programmava una riabilitazione protesica provvisoria con applicazione degli elementi dentali mancanti fissati su anelli circumcoronali con lo scopo di mantenere lo spazio e di evitare il movimento degli elementi dentali residui (fig. 11a,b). Dopo la rimozione della placca in titanio si prevedeva la riabilitazione definitiva con innesto osseo e implantologia osteointegrata.

3. DISCUSSIONE

L'ameloblastoma mandibolare è un tumore a crescita lenta derivante da epitelio odontogeno che può portare a espansione corticale fino alla perforazione della stessa e all'invasione dei tessuti molli circostanti. La maggior parte dei pazienti si presenta all'osservazione quando la dimensione del tumore determina dolore, interessa la funzione o altera la normale simmetria facciale.

Radiograficamente l'ameloblastoma presenta il caratteristico aspetto a "bolla di sapone" talvolta multilobulato unicistico e multicistico; altre volte può apparire

11a



11b



Fig. 11a,b

Riabilitazione protesica provvisoria mediante applicazione di mantenitore di spazio con gli elementi dentali mancanti

sottile come i follicoli di eruzione dei denti [6]. La posizione più comune è quella dei quadranti posteriori della mandibola, e molto spesso è associata a denti inclusi e cisti follicolari, causando espansione delle piastre corticali con margini frastagliati e perforazioni con riassorbimento dei denti coinvolti nelle fasi avanzate [7,8]. La lesione può essere rilevata con una radiografia panoramica completata da uno studio TC. La TC è generalmente utile per determinare i contorni della lesione, il suo contenuto e la sua estensione nei tessuti molli.

L'ameloblastoma in genere mostra una crescita espansiva con un guscio osseo. Alla TC sono presenti aree cistiche di bassa attenuazione rispetto alle aree solide. Il mezzo di contrasto mostra un effetto radiocaptante superiore sui componenti solidi. Anche se non vi sono importanti differenze tra risonanza magnetica e tomografia computerizzata nella capacità di rilevare la componente cistica del tumore, la RM è utile per stabilire l'entità esatta di un ameloblastoma mascellare in progressione [9,10]. La RMN convenzionale è superiore alla diagnostica iniziale [11] e nel follow-up delle recidive [12].

La RMN consente anche di differenziare

l'ameloblastoma dal tumore odontogeno cheratocistico [13].

La diagnosi differenziale dell'ameloblastoma si pone anche con la cisti ossea aneurismatica, il fibrosarcoma o un tumore a cellule giganti [6].

La chirurgia è il trattamento di scelta. Può essere conservativa o radicale. Possibilità di trattamento conservativo sono l'enucleazione, il curettage o la marsupializzazione senza resezione ossea circostante che consentono una minima invasività della sede di crescita dell'ameloblastoma. In questa forma di tumore odontogeno è riportato un tasso di recidiva attorno al 30% e fino al 90% dei casi [14,15]. La recidiva dopo trattamento chirurgico iniziale è il risultato della crescita infiltrante dell'ameloblastoma attraverso l'osso adiacente, imputabile alla caratteristica dell'osso spongioso che può permettere l'invasione locale anche oltre i margini radiograficamente visibili.

Nell'ameloblastoma periferico è indicato un trattamento conservativo, data la ridotta tendenza alla recidiva. Il trattamento dell'ameloblastoma multicistico e dell'unicistico è ancora oggetto di discussione [16], essendo il multicistico associato a un'alta percentuale di recidiva.

Generalmente viene asportato chirurgicamente mantenendo ampi margini. L'unicistico è considerato meno aggressivo rispetto alla variante multicistica e alcuni algoritmi propongono un trattamento conservativo per questo tumore [17]. Ueno et al. [18] nello studio condotto su 91 pazienti riportano un tasso di recidiva variabile dal 9% al 46% nei pazienti trattati, rispettivamente, in maniera radicale e conservativa. Nakamura et al. [19] hanno indagato il rapporto tra estensione della resezione chirurgica e recidiva dell'ameloblastoma multicistico in 78 casi: i pazienti trattati in maniera conservativa presentavano una recidiva del 45%, quelli trattati con resezione radicale una recidiva del 10% [3].

Il trattamento locale conservativo sembra essere accettabile in pazienti giovani e in crescita, al fine di minimizzare l'impatto psicologico di una resezione aggressiva e futuri problemi funzionali o di crescita, e nei pazienti anziani per evitare gravi complicazioni chirurgiche. È accettabile anche nei casi di ameloblastomi unicistici, se il tumore non si è diffuso oltre la membrana basale della cisti [20]. In ogni caso l'esame biotipico istologico eseguito prima dell'intervento chirurgico

è obbligatorio sia per la diagnosi sia per il trattamento chirurgico di scelta.

4. CONCLUSIONI

L'ameloblastoma dei mascellari è un tumore odontogeno benigno, localmente invasivo e con un'alta percentuale di recidiva a lungo termine se associato a un approccio terapeutico chirurgico iniziale non adeguato.

Il trattamento primario consiste in una resezione della lesione in tessuto osseo sano (box osseo). In caso di recidiva, il metodo di trattamento ideale è la resezione ossea (mandibulectomia o maxillectomia) con un margine di sicurezza di almeno 1 cm oltre i bordi radiograficamente visibili. La ricostruzione della struttura ossea con cresta iliaca può essere immediata o differita [20]. Nel caso di demolizioni allargate sono indicati gli innesti liberi microchirurgici. Il posizionamento di impianti dentali è preferibile avvenga in un tempo differito. In caso di deficit secondari delle parti molli, dopo chirurgia maggiore è indicata la lipostruttura del volto secondo la tecnica di Coleman [21].

CONFLITTO DI INTERESSI

Gli autori dichiarano di non avere alcun conflitto di interessi.

FINANZIAMENTI ALLO STUDIO

L'articolo presentato non è stato sostenuto da alcuna fonte di finanziamento.

BIBLIOGRAFIA

1. Sehdev MK, Huvos AG, Strong EW, Gerold FP, Willis GW. Proceedings: Ameloblastoma of maxilla and mandible. *Cancer* 1974;33(2):324-33.
2. Becelli R, Morello R, Renzi G, Matarazzo G, Dominici C. Treatment of recurrent mandibular ameloblastoma with segmental resection and revascularized fibula free flap. *J Craniofac Surg* 2011;22(3):1163-5.
3. Black CC, Addante RR, Mohila CA. Intraosseous ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2010;110(5):585-92.
4. Hertog D, Bloemena E, Aartman IH, 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;17(1):e76-82.
5. Chana JS, Chang YM, Wei FC, Shen YF, Chan CP, Lin HN, et al. Segmental mandibulectomy and immediate free fibula osteoseptocutaneous flap reconstruction with endosteal implants: an ideal treatment method for mandibular ameloblastoma. *Plast Reconstr Surg* 2004;113(1):80-7.
6. Gümüş S, Hoşgören B. Clinical and radiologic behaviour of ameloblastoma in 4 cases. *J Can Dent Assoc* 2005;71(7):481-4.
7. Wood N, Goaz P. Differential Diagnosis of Oral and Maxillofacial Lesions. Multilocular radiolucencies. 5th Ed. St. Louis, MO: Mosby, 1997: pp. 337-40.
8. Cakur B, Caglayan F, Altun O, Miloglu O. Plexiform ameloblastoma. *Erciyes Med J* 2009;(Suppl 1):S62-7.
9. Kim SG, Jang HS. Ameloblastoma: a clinical, radiographic and histopathologic analysis of 71 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2001;91(6):649-53.
10. Gardner DG. Some current concepts on the pathology of ameloblastomas. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1996;82(6):660-9.
11. Konouchi H, Asaumi J, Yanagi Y, Hisatomi M, Kawai N, Matsuzaki H, et al. Usefulness of contrast enhanced-MRI in the diagnosis of unicystic ameloblastoma. *Oral Oncol* 2006;42(5):481-6.
12. Kawai T, Murakami S, Kishino M, Matsuya T, Sakuda M, Fuchihata H. Diagnostic imaging in two cases of recurrent maxillary ameloblastoma: comparative evaluation of plain radiographs, CT and MR images. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1998;36(4):304-10.
13. Fujita M, Matsuzaki H, Yanagi Y, Hara M, Katase N, Hisatomi M, et al. Diagnostic value of MRI for odontogenic tumours. *Dentomaxillofac Radiol* 2013;42(5):20120265.
14. Luo DY, Feng CJ, Guo JB. Pulmonary metastases from an ameloblastoma: case report and review of the literature. *J Craniomaxillofac Surg* 2012;40(8):e470-4.
15. Pogrel MA, Montes DM. Is there a role for enucleation in the management of ameloblastoma? *Int J Oral Maxillofac Surg* 2009;38(8):807-12.
16. Escande C, Chaîne A, Menard P, Ernenwein D, Ghou S, Bouattour A, et al. A treatment algorithm for adult ameloblastomas according to the Pitié-Salpêtrière Hospital experience. *J Craniomaxillofac Surg* 2009;37(7):363-9.
17. Sammartino G, Zarrelli C, Urciuolo V, di Lauro AE, di Lauro F, Santarelli A, et al. Effectiveness of a new decisional algorithm in managing mandibular ameloblastomas: a 10-years experience. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2007;45(4):306-10.
18. Ueno S, Mushimoto K, Shirasu R. Prognostic evaluation of ameloblastoma based on histologic and radiographic typing. *J Oral Maxillofac Surg* 1989;47(1):11-5.
19. Nakamura N, Higuchi Y, Mitsuyasu T, Sandra F, Ohishi M. Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93(1):13-20.
20. Infante-Cossio P, Prats-Golczer V, Gonzalez-Perez LM, Belmonte-Caro R, Martinez-DE-Fuentes R, Torres-Carranza E, et al. Treatment of recurrent mandibular ameloblastoma. *Exp Ther Med* 2013;6(2):579-83.
21. Clauser LC, Tieghi R, Galiè M, Carinci F. Structural fat grafting: facial volumetric restoration in complex reconstructive surgery. *J Craniofac Surg* 2011;22(5):1695-701.