

促结缔组织增生型成釉细胞瘤的临床及 CT 影像学分析

曹雅¹ 王铁梅¹ 韩超¹ 孙国文² 杨功鑫³ 吴大明⁴ 林梓桐^{1*} 王从跃^{2*}

- (1. 南京大学医学院附属口腔医院, 南京市口腔医院口腔颌面医学影像科 江苏南京 210008;
2. 南京大学医学院附属口腔医院, 南京市口腔医院口腔颌面外科 江苏南京 210008;
3. 上海交通大学医学院附属第九人民医院口腔颌面医学影像科 上海 201999;
4. 南京医科大学附属口腔医院, 江苏省口腔医院口腔颌面医学影像科 江苏南京 210029)

[摘要] 目的: 回顾性分析南京大学医学院附属口腔医院、南京医科大学附属口腔医院及上海交通大学医学院附属第九人民医院近 3 年来收治的 10 例促结缔组织增生型成釉细胞瘤(Desmoplastic ameloblastoma, DA) 的临床及 CT 影像学特点, 为其诊断提供依据。方法: 对 2014 年 3 月~2017 年 9 月收治的具有完整资料的 10 例 DA 患者的临床, 影像资料进行分析。临床资料包括患者的性别, 年龄, 发生部位, 手术治疗方式, 术后随访结果。影像学分析包括病变的大小、形态, 颌骨膨胀方向、牙齿移位及牙根吸收情况、病变区有无阻生牙、行 SCT 检查的患者 SCT 图像上病变的 CT 值, 并对 10 例 DA 进行影像学分型。结果: 10 例 DA 患者, 病变均位于上颌骨前牙及前磨牙区, CT 影像上均表现为蜂窝型, 内部均可见索条、分隔影像, 颌骨显示颊侧膨隆; 10 例患者均经病理学证实为 DA。10 例患者均行颌骨部分切除术, 术后随访未见复发。结论: 促结缔组织增生型成釉细胞瘤具有特征性蜂窝状 CT 表现, 其 CT 表现与其病理学特点具有一定的相关性。

[关键词] 促结缔组织增生型成釉细胞瘤 CT 影像学 蜂窝状 诊断

[文献标识码] A **[文章编号]** 1671—7651(2018)07—0751—05

[doi] 10.13701/j.cnki.kqyxj.2018.07.016

Clinic and CT Presentation of Desmoplastic Ameloblastoma. CAO Ya¹, WANG Tie-me¹, HAN Chao¹, SUN Guo-wen², YANG Gong-xin³, WU Da-ming⁴, LIN Zhi-tong^{1*}, WANG Cong-yue^{2*}. 1. Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Stomatological Hospital, Medical College of Nanjing University, Nanjing 210008, China; 2. Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Stomatological Hospital, Medical College of Nanjing University, Nanjing 210008, China; 3. Department of Oral and Maxillofacial Radiology, The Ninth People's Hospital, Medical School of Shanghai Jiao Tong University, Shanghai 201999, China; 4. Department of Oral and Maxillofacial Radiology, Stomatological Hospital, Nanjing Medical University, Nanjing 210029, China.

[Abstract] **Objective:** To retrospectively analyze the clinical and CT imaging features of 10 cases of desmoplastic ameloblastoma (DA) treated in recent 3 years. **Methods:** From March 2014 to September 2017, 10 cases of DA who referred to three hospitals and have completed clinic and CT images were collected and analyzed. The clinical data included the patient's sex, age, location of lesion, surgical treatment, and postoperative follow-up. Imaging analysis included lesion size, morphology, bone expansion, tooth movement and root resorption, impacted tooth, and the CT values of the lesion that was performed SCT examination. Moreover, 10 cases were divided based on their CT images. **Results:** Ten cases of DA were all located in the anterior and premolar area of maxilla. CT images showed

基金项目 江苏省自然科学基金面上项目

(编号: BK20150089)

南京市医学科技发展项目(编号: YKK15116)

南京市医学科技发展资金项目(编号: QRX17079)

作者简介 曹雅(1991~), 女, 江苏淮安人, 硕士在读, 主要从事口腔医学的研究工作。

* **通讯作者** 林梓桐, E-mail: linzitong710@163.com

王从跃, E-mail: wcy239@126.com

honeycomb type with slim or sharp division and buccal expansion. All cases were confirmed by pathology. Ten patients underwent partial jaw resection and no recurrence was found after follow-up. **Conclusion:** DA has characteristic honeycomb CT appearance and buccal expansion. Its CT appearance relates to its histopathological features.

[Key words] Desmoplastic Ameloblastoma CT presentation Honeycomb type Diagnosis

成釉细胞瘤一种具有牙源性上皮、成熟的纤维基质和无牙胚间充质的良性肿瘤;成釉细胞瘤主要分为四型:实性/多囊型、促结缔组织增生型、骨外/外周型以及单囊型^[1~3]。促结缔组织增生型成釉细胞瘤(desmoplastic ameloblastoma, DA)是成釉细胞瘤一种少见类型,它具有特征性临床、影像及病理表现。由于DA的发病率较低,关于DA的文献大多为病例报道,为进一步认识DA的CT影像学特点,我们对本院、南京医科大学附属江苏省口腔医院及上海交通大学医学院附属第九人民医院近年来收集的10例DA的临床及CT表现进行回顾性分析,总结其特点,为进一步认识和诊断DA提供参考。

1 材料与方法

1.1 临床资料 病例来自南京大学医学院附属口腔医院、南京医科大学附属口腔医院及上海交通大学医学院附属第九人民医院2014年3月~2017年9月收住入院患者,10例均经病理证实。收集的临床资料包括患者年龄,性别,发生部位,治疗方式及术后随访情况。

1.2 影像学分析 10例DA患者的影像学资料包括全部患者摄取的颌面部CT图像。2名患者在首次进行CBCT检查后,由于患者个人原因,未即刻入院治疗,分别于6个月及10个月后入院治疗,二次入院前行SCT检查;4例患者术前行CBCT检查;6例患者术前行SCT检查。故最终得到的6例患者的SCT资料,6例患者的CBCT资料。由我院

口腔颌面医学影像科医师对10例患者的SCT/CBCT影像进行详细解读,对下列指标进行评价:1)轴位最大切面肿瘤大小;2)肿瘤形态,分为单囊型、多囊型及蜂窝型;3)颌骨膨胀方向;4)牙齿移位及牙根吸收情况;5)病变区有无阻生牙;6)并对SCT检查患者的影像进行CT值的测量。其中,DA分型是根据《口腔颌面医学影像诊断学》^[4]中对成釉细胞瘤的X线分型,并结合2014年Luo等^[5]对DA的CBCT影像学征象的分型^[6]将DA分为:单房型、多房型及蜂窝型。此外,根据国内王世平等^[6]对武汉大学口腔医院15例DA患者的X线影像学分类,对DA进行了以下3型的区分:1)单房改变;2)多房或皂泡状改变;3)混合性改变(详见结果部分)。

1.3 病理学分析 10例患者的手术标本经常规固定、包埋、切片及苏木精-伊红(haematoxylin-eosin, HE)染色后保存。

2 结果

2.1 5例DA患者的临床资料 10例促结缔组织增生型成釉细胞瘤患者中,男6例,女4例,男女比例为6:4,年龄22~68岁,平均年龄44.9岁。肿瘤均位于上颌骨10例前牙区或前磨牙区(100%)。手术前病程最短为3个月,最长达6年以上,平均约3年。10例患者,均采用颌骨部分切除术。10例患者复查时间0.5~2年,均未见复发现象。

2.2 10例DA患者的影像学资料 10例DA患者的详细影像学特征详见表1。

表1 10例DA患者的临床、影像资料

Table 1 The clinical and imaging data of 10 DA cases

病例号	性别	年龄/岁	部位	治疗方式	术后随访	大小/mm	肿瘤形态	颌骨膨胀方向	牙齿移位及牙根吸收	病变区有无埋伏、阻生牙	SCT检查CT值(Hu)
1	男	68	16~23区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	44.1×21.3	蜂窝型(混合)	颊侧	有	13水平阻生	/
2	女	22	22~25区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	22.6×17.9	蜂窝型(混合)	颊侧	有	未见	54/780
3	男	66	11~15区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	22.3×22.0	蜂窝型(单房)	颊侧	有	11、21间多生牙1颗	42/480
4	女	37	22~25区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	21.3×16.8	蜂窝型(混合)	颊侧	有	未见	39/550
5	女	44	22~26区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	36.5×26.7	蜂窝型(多房或皂泡)	颊侧	有	未见	/
6	男	54	33~42区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	18.0×16.2	蜂窝型(混合)	颊侧	有	未见	/
7	女	48	22~26区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	33.3×26.9	蜂窝型(单房)	颊侧	有	未见	/
8	男	36	34~42区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	23.6×16.6	蜂窝型(单房)	颊侧	有	未见	46/446
9	男	21	16~21区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	40.7×25.5	蜂窝型(单房)	颊侧	有	未见	58/340
10	男	53	34~46区	颌骨部分切除术	预后良好未见复发	53.6×29.3	蜂窝型(混合)	颊侧	有	未见	74/620

注:SCT/CT值:病例2、3、4、8、9、10采用SCT检查,在轴位最大切面在低密度及高密度区分别测得的不同CT值



1a:DA 单房改变,肿瘤内不规则片状或条索状影像;1b:DA 多房或皂泡状改变,肿瘤内有不规则状条纹骨隔,使之形成不规则房室,骨质膨隆明显;1c、1d:DA 混合性改变,肿瘤内聚集大量排列紊乱条索状密度不均匀似丛状团块影像,其间可见骨小梁断裂,大小不等点状,边缘常伴有单囊状改变。1c、1d 均来自病例 2 SCT 轴位不同层次的影像,图 1c 显示病变区见条索状不均匀密度减低影像,图 1d 显示病变区聚集大量排列紊乱条索状密度不均匀似丛状团块影像,骨小梁断裂,大小不等点状,边缘伴有单囊状改变

图 1 DA 的 3 种 CT 影像学表现及分型

Fig. 1 CT imaging features and three types of classification of DA.

根据成釉细胞瘤的 X 线分型,结合 Luo 等^[5]对 DA 的 CT 分型,本文将 10 例 DA 进行了影像学分型,结果显示本文中收集的 10 例 DA 均为蜂窝型,但是其内部结构具有一定的差异。根据国内王世平等^[6]对 DA 的分类本文将进一步分类为:1)单房改变(图 1a):肿瘤内可见不规则小片状或条索状不均匀密度减低影像;2)多房或皂泡状改变(图 1b):肿瘤在以密度减低为主的同时,有较多的致密条纹样骨隔,分隔可呈直线状或不规则状,条纹粗细不均,使之形成皂泡状多房影像,房室可呈方形,三角形或不规则网状(图 2)。3)混合性改变(图 1c、1d):

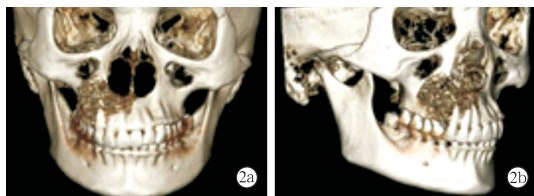
X 线表现为病变内聚集大量排列紊乱条索状密度不均匀似丛状团块影像,其间可见骨小梁断裂,大小不等点状,边缘常伴有单囊状改变。

组织病理:肿瘤由上皮和大量增生的纤维间质构成,上皮为形状不规则的岛或条索状(图 3)。上皮条索及大部分上皮岛呈明显的压缩状,其中中央细胞多呈梭形,排列致密,形成旋涡状或发生鳞状化生;少数呈裂隙状。一些文献报道有少部分上皮具有成釉细胞瘤的特点,肿瘤间质为大量增生的纤维结缔组织,胶原纤维排列致密,呈纵横交错排列,有些病例伴有骨化现象^[7~10]。

3 讨论

本研究中的肿瘤边界较清晰,骨内病灶有边缘硬化,病变处骨质明显膨隆,一侧明显膨隆者以向唇和/或颊侧膨隆明显者居多,此特征与文献报道的一致^[11]。关于 DA 的发生部位,不同于实性/多囊型成釉细胞瘤多发生于下颌骨磨牙及升支区多见,文献报道 DA 较多发生于上颌骨前部^[12~14]。国内王世平等^[6]对 15 例 DA 的统计分析显示上颌骨 7 例,下颌骨 8 例,上下颌骨差别不大,但病变位于前牙区和(或)前磨牙区者达 86.66%。Luo 等^[5]报道的 7 例 DA 患者中,4 例发生在下颌骨,3 例发生在上颌骨,7 例 DA 均发生于颌骨前牙及前磨牙区。但 Effiom 等^[15]对 17 例尼日利亚 DA 的研究则显示下颌骨后部发生较多。本文收集的 10 例 DA 患者,7 例发生于上颌骨,3 例发生于下颌骨,并位于前牙区和(或)前磨牙区(100%)。

根据国内王世平等人对 DA 的分类,本文将进一步分类为 1)单房改变:肿瘤内可见不规则小片状或条索状不均匀密度减低影像;2)多房或皂泡状改变:肿瘤在以密度减低为主的同时,有较多的致密条纹样骨隔,分隔可呈直线状或不规则状,条纹



2a:正面观;2b:侧斜面观

图 2 病例 5 的 CBCT 表面重建:右上颌骨病变区呈蜂窝状改变,可见多发致密骨分隔

Fig. 2 CBCT surface reconstruction of Case 5: the right maxillary lesion was honeycombed changes and multiple dense bone separation could be seen.

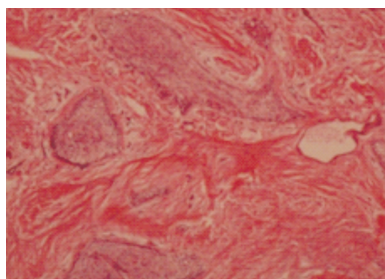


图 3 大量增生的纤维间质及压缩状的肿瘤上皮岛和条索(苏木精-伊红染色,×100)

Fig. 3 Hyperplastic fibrous interstitial and compressed tumor epithelial islands and cords (HE,×100)

粗细不均,使之形成皂泡状多房影像,房室可呈方形,三角形或不规则网状。3)混合性改变:X线表现为病变内聚集大量排列紊乱条索状密度不均匀似丛状团块影像,其间可见骨小梁断裂,大小不等点状,边缘常伴有单囊状改变。从文中的描述可以看出,该分型中DA的单房及多房不同于单囊及多囊/实性型成釉细胞瘤,其内部结构较为复杂,均可见索条、分隔影像,形成类似于蜂窝的改变,本文统一将其归类为蜂窝型,这也是DA非常特征性的表现。DA的病理学显示肿瘤间质内有大量增生的纤维结缔组织,胶原纤维排列致密,呈纵横交错排列,有些病例并伴有骨化现象^[7~10]。国内学者李江等认为DA主要为实性软组织,肿瘤在骨小梁之间的间隙内生长,其中散在一些残存骨小梁可能是形成了DA特征性的影像学表现的原因^[16]。王世平等^[6]认为DA的骨分隔与其骨化有关,这一观点也在Majumdar等^[9]的病例报道中有所论述。在2017年最新版WHO头颈部肿瘤分类也提到DA的骨化可能。笔者也认为部分病例致密条纹样骨隔的影像学表现可能与病理学上的结缔组织的骨化有关(病例5)。当然,这一观点有待病理和影像的对照性研究证实。

DA影像学上需要与骨化性纤维瘤及牙源性腺样瘤相鉴别。骨化性纤维瘤CT表现为单囊或多囊性低密度影为主,内有团块或斑片状高密度灶。肿瘤边界较清楚,形态一般较规则,病变范围大者颌骨膨胀明显,骨皮质受压变薄,但仍连续。病变区相邻牙齿受压移位明显,牙根多不吸收^[17]。牙源性腺样瘤以往称为腺成釉细胞瘤,认为是成釉细胞瘤的变异型,1971年世界卫生组织将其列为颌骨内一种独立的牙源性肿瘤^[4],牙源性腺样瘤具有其独特的临床特征,几乎均发生于颌骨内,以上颌骨前部较为多见,也可发生于磨牙区,大部分病例发现时患者年龄小于30岁,多为10~20岁青少年,女性略多于男性。该肿瘤常为缓慢的渐进性生长的无痛性肿物,仅局部膨胀,致使面部变形,从而促使患者就诊^[13]。影像学上颌骨牙源性腺样瘤多呈圆形或类圆形改变,病变边界清晰,周围多伴有致密性骨皮质线或硬化。病变的局部出现形态大小不一的高密度钙化影,内部多含有阻生牙(多为发育完整或发育不全的尖牙,也可以有乳尖牙滞留)。与DA相比:牙源性腺样瘤多出现在尖牙和双尖牙区;病变内钙化斑点较DA多;平均发病年龄小于DA^[17]。

由于本文中收集的DA的影像学资料包括

SCT及CBCT资料,对比两种影像学资料可以发现,SCT在显示内部细节方面比CBCT更加具有优势,特别是对于没有骨化的纤细条索显示方面,由于SCT的密度分辨率更高,可以看到肿瘤内部更多的细节,同时通过测量CT值对于肿瘤组织的内部结构也可以进行分析,更加有助于诊断。当然,由于CBCT的辐射剂量较低,在不影响临床诊断的前提下,如何选择检查方式也是临床上需要考虑的问题。

参考文献

- [1] Barnes L, Eveson JW, Reichart PA, et al. World Health Organization classification of tumors: pathology and genetics of tumors of the head and neck [M]. Lyon: IARC, 2005: 330-386
- [2] 贾雪萍,唐恩溢.彻底刮治术治疗下颌骨成釉细胞瘤的临床研究[J].口腔医学研究,2017,33(5):567-570
- [3] 贺娟,申铁兵.成釉细胞瘤的病理分型与治疗方式[J].中华老年口腔医学杂志,2016,14(2):125-128
- [4] 马绪臣.口腔颌面医学影像诊断学[M].第6版.北京:人民卫生出版社,2012:114
- [5] Luo J, You M, Zheng G, et al. Cone beam computed tomography signs of desmoplastic ameloblastoma: review of 7 cases [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2014, 118(4): e126-e133
- [6] 王世平,陈新明,程勇,等.促结缔组织增生性成釉细胞瘤的X线分析[J].中华口腔医学杂志,2001,36(4):253-255
- [7] Waldron CA, El-Mofty SK. A histopathologic study of 116 ameloblastomas with special reference to the desmoplastic variant [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 1987, 63(4): 441-451
- [8] Philipsen HP, Reichart PA, Chong HS, et al. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumour: a collaborative retrospective study [J]. J Oral Pathol Med, 2007, 36(7): 383-393
- [9] Majumdar S, Uppala D, Kotina S, et al. Desmoplastic ameloblastoma [J]. Int J Appl Basic Med Res, 2014, 4 (Suppl 1): S53-S55
- [10] Savithri V, Janardhanan M, Suresh R, et al. Desmoplastic ameloblastoma with osteoplasia: Review of literature with a case report [J]. J Oral Maxillofac Pathol, 2013, 17(2): 298-301
- [11] 管帅,郝大鹏,刘吉华,等.颌骨成釉细胞瘤的影像学诊断[J].实用放射学杂志,2014,30(5):747-750
- [12] Philipsen HP, Ormiston IW, Reichart PA. The desmo- and osteoplastic ameloblastoma. Histologic variant or clinicopathologic entity? Case reports [J]. Int J Oral Maxillofac Surg, 1992, 21(6): 352-357
- [13] Philipsen HP, Reichart PA, Takata T. Desmoplastic ameloblastoma (including "hybrid" lesion of ameloblastoma). Biological profile based on 100 cases from the literature and own files [J]. Oral Oncol, 2001, 37(5):455-460

[14] Lam KY, Chan AC, Wu PC, et al. Desmoplastic variant of ameloblastoma in Chinese patients [J]. Br J Oral Maxillofac Surg, 1998, 36(2) : 129-134

[15] Effiom OA, Odukoya O. Desmoplastic ameloblastoma: analysis of 17 Nigerian cases [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 2011, 111(1) : e27-e31

[16] 李江, 张伟国. 15 例促结缔组织增生型成釉细胞瘤的临床病理分析[J]. 华西口腔医学杂志, 1998, 5(2) : 138-140

[17] 余强, 王平仲. 主编. 颌面颈部肿瘤影像诊断学[M]. 上海: 中国出版集团公司, 2009 : 50-52, 85-86

[收稿日期: 2017-12-26] (本文编辑 李四群)

《口腔医学研究》杂志审稿流程示意图

