



ELSEVIER
MASSON

Reçu le :
30 août 2005
Accepté le :
1^{er} décembre 2005



La tumeur odontogénique adénomatoïde : deux cas

Adenomatoid odontogenic tumor: two cases

F. Farah-Klibi^{1,*}, L. Ferchichi¹, H. Beyâa Rassou¹, I. Zairi², S. Rameh¹,
A. Adouani², S.B. Ben Jilani¹, R. Zermani¹

¹Service d'anatomie et de cytologie pathologiques de l'hôpital Charles-Nicolle de Tunis,
boulevard 9-avril-1938, 1006 Tunis, Tunisie

²Service de chirurgie maxillofaciale de l'hôpital Charles-Nicolle de Tunis,
boulevard 9-avril-1938, 1006 Tunis, Tunisie

Summary

Introduction. Adenomatoid odontogenic tumor, initially referred to as adenoameloblastoma, is a rare and benign odontogenic tumor. No recurrence has been reported after enucleation–resection.

Case reports. We report two cases of adenomatoid odontogenic tumor, which illustrate the radiological and anatomic features of this tumor. They occurred in two 21 and 14 years-old teenagers who presented gingival swelling. The panoramic radiographs showed a radiolucent lesion with an impacted tooth. Enucleation–resection was performed with good outcome.

Discussion. The clinical, radiological and histological features of adenomatoid odontogenic tumor are distinct from those of ameloblastoma. It affects most commonly patients in the second decade of life predominantly females. This tumor is frequently misdiagnosed as other odontogenic cysts or tumors. We discuss the anatomoclinical features and the histogenesis of this rare tumor.

© 2006 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Keywords: Odontogenic tumor, Odontogenic cyst, Histopathology

Résumé

Introduction. La tumeur odontogénique adénomatoïde, anciennement dénommée adénoaméloblastome, est une tumeur épithéliale odontogène bénigne et rare. Elle ne récidive jamais après simple énucléation chirurgicale. À partir de deux cas, nous soulignons les caractères radiologiques et anatomopathologiques de cette tumeur.

Observations. Il s'agissait de deux adolescents de 14 et 21 ans ayant présenté une tuméfaction gingivale. La radiographie panoramique montrait une image kystique avec une dent incluse. La conduite à tenir a été une énucléation du kyste avec curetage de la cavité. L'évolution a été favorable sans récurrence dans les deux cas.

Discussion. Les caractéristiques cliniques et radiologiques de la tumeur odontogénique adénomatoïde sont bien distinctes de celles de l'améloblastome. Elle s'observe chez l'adulte au cours de la deuxième décennie avec une prédilection féminine. Développée au pourtour d'une cavité kystique renfermant une dent incluse, elle prête à confusion avec d'autres kystes et tumeurs odontogéniques. Le traitement est chirurgical et consiste en une énucléation avec curetage de la cavité résiduelle. Nous discutons les différents aspects anatomocliniques, l'histogénèse et les caractéristiques évolutives de cette entité rare.

© 2006 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

Mots clés : Tumeur odontogénique, Kyste odontogénique, Histopathologie

Introduction

La tumeur odontogénique adénomatoïde (TOA) est une tumeur épithéliale odontogène bénigne et rare [1]. Elle est d'individualisation assez récente. En effet, elle a été décrite

pour la première fois par Stafine en 1948 [2]. Au début, elle était considérée comme une variante de l'améloblastome d'où l'ancienne appellation d'adénoaméloblastome [3]. Ce n'est qu'en 1969 que Philipsen et Birn ont proposé le terme actuel de TOA [4]. La TOA présente des caractéristiques cliniques et radiologiques bien distinctes de celles des améloblastomes [5]. Nous les illustrons par deux cas.

* Auteur correspondant.
e-mail : farah_faten@yahoo.fr

Observations

Cas n° 1

M. SK, âgé de 21 ans, a été admis pour un kyste péri-coronaire avec un retard d'éruption de l'incisive supérieure droite. L'examen endobuccal révélait une voussure gingivale droite en regard de l'emplacement de la 12. La radiographie panoramique montrait une 12 incluse entourée par une image kystique qui refoulait la 13 (fig. 1). Le kyste a été énucléé avec la dent incluse et la cavité a été curetée. L'examen anatomopathologique a porté sur une formation kystique de 2 cm de grand axe. Il montrait une prolifération épithéliale odontogène agencée en lobules pleins, en travées et parfois en cavités pseudoglandulaires. Certains lobules étaient centrés par un matériel hyalin éosinophile calcifié (fig. 2). Les cellules étaient polygonales munies d'un cytoplasme abondant, éosinophile et d'un noyau régulier, nucléolé sans atypie ni mitose (fig. 3). Le diagnostic de



Figure 1. Image kystique avec 12 incluse et 13 refoulée.

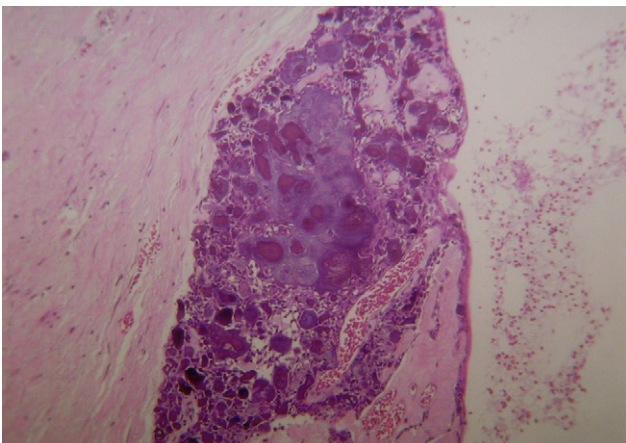


Figure 2. Lobules centrés par un matériel hyalin éosinophile calcifié (HE x 40).

TOA a été retenu. L'évolution a été favorable sans récurrence après neuf ans de recul.

Cas n° 2

Mlle FN âgée de 14 ans, aux antécédents de surdité congénitale appareillée, a été admise pour une tuméfaction parasymphyse droite évoluant depuis deux ans. L'examen clinique retrouvait une tumeur de 4 cm de diamètre, non douloureuse, parasymphyse droite associée à une adéno-pathie sous angulomaxillaire droite de consistance ferme et mesurant 2 cm de diamètre. Il n'y avait ni troubles sensitifs ni mobilité anormale. La radiographie panoramique montrait une image mixte faite d'une géode unique bien limitée avec un aspect piqueté central englobant la 43 incluse. Le traitement a été une énucléation avec curetage de la cavité résiduelle. L'étude histologique a montré la présence de cellules épithéliales disposées en travées et lobules avec une assise basale cubique au sein d'un stroma conjonctif grêle. On notait, par ailleurs, la présence de cavités pseudoglandulaires à matériel hyalin et éosinophile (fig. 4). Le diagnostic de TOA a été posé. L'évolution a été favorable sans récurrence avec un recul de neuf mois.

Discussion

La TOA est une lésion hamartomateuse bénigne et rare. En effet, elle représente 3 % de l'ensemble des tumeurs odontogéniques [6]. Elle est plus fréquente chez la femme avec un sex-ratio de 1/2 et s'observe surtout au cours de la deuxième décennie de la vie [7]. Le site de prédilection de la tumeur est la région antérieure du maxillaire [3]. Elle est

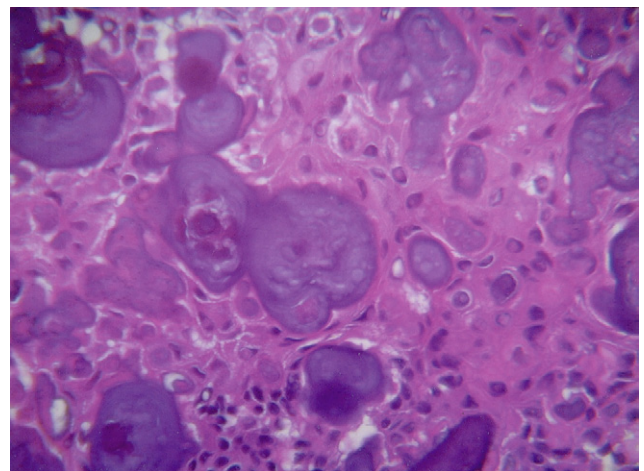


Figure 3. Cellules polygonales munies d'un cytoplasme abondant, éosinophile et d'un noyau régulier, nucléolé sans atypie ni mitose (HE x 400).

le plus souvent asymptomatique ; parfois, elle peut être à l'origine d'une tuméfaction dure et indolore ou d'un saignement endobuccal [3].

Il existe trois variantes clinicotopographiques de la TOA [8] :

- le type folliculaire : c'est le type le plus fréquent (73 % des cas). Il s'agit d'une lésion intraosseuse centrale associée à une dent incluse ;
- le type extrafolliculaire (25 % des cas) : il s'agit d'une lésion intraosseuse qui siège le plus souvent entre les racines des dents ;
- le type périphérique (2 %) : il se développe au niveau du tissu gingival.

L'image radiologique caractéristique est celle d'une cavité kystique renfermant des images radio-opaques. Toutefois, celle-ci n'est pas spécifique [6]. En effet, le diagnostic différentiel radiologique de la TOA, dans sa variante extrafolliculaire essentiellement, se pose avec un kyste odontogénique calcifié, une tumeur épithéliale odontogénique calcifiée (tumeur de Pindborg), un odontome, un améloblastome ou un simple kyste dentigère. L'aspect en imagerie par résonance magnétique semblerait, selon certains auteurs, assez caractéristique pour pouvoir évoquer le diagnostic en préopératoire [6].

Le diagnostic suspecté sur les données cliniques et radiologiques ne peut être confirmé que par l'étude anatomopathologique de la pièce opératoire.

Macroscopiquement, il s'agit d'une cavité de 1 à 5 cm de diamètre dont la paroi d'épaisseur variable présente quelques petites surélévations endocavitaires [9]. Histologiquement, les cellules épithéliales sont agencées en travées ou en lobules compacts au sein d'un stroma conjonctif grêle.

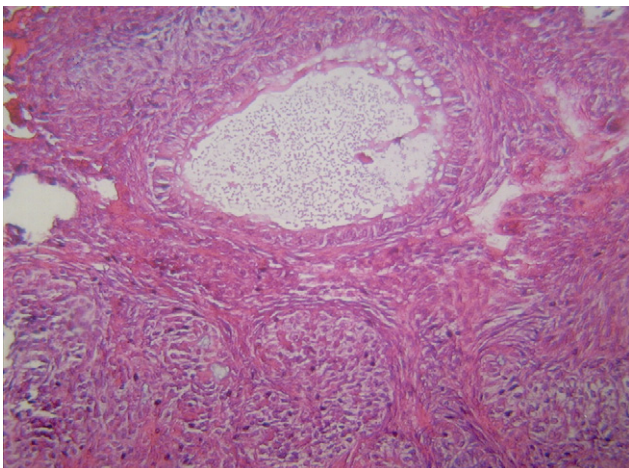


Figure 4. Cavités pseudoglandulaires à matériel hyalin et éosinophile (HE × 200).

Par places, elles peuvent adopter un aspect cylindrique améloblastique avec présence de cavités pseudoglandulaires dépourvues de sécrétion muqueuse (PAS et Bleu Alcian négatifs). Au sein des massifs épithéliaux s'observent de petites masses de matériel hyalin, éosinophile pouvant secondairement se calcifier. Les activités histoenzymologiques de ces cellules sont particulières. En effet, ces cellules présentent sur leur membrane cytoplasmique une activité ATPasique et phosphatase alcaline intense [9]. En microscopie électronique, les rares cas étudiés jusqu'ici révèlent deux types de cellules : les unes polygonales ou cylindriques, riches en tonofilaments qui s'apparentent à des préaméloblastomes, les autres étoilées plus petites rappellent la structure du stratum intermedium et du réticulum étoilé du bourgeon dentaire [9]. Quant à la nature exacte des dépôts hyalins, elle est controversée. En effet, certains auteurs l'assimilent à une substance *amyloid-like* de structure proche de la matrice de l'émail, car elle renferme un riche réseau de microfibrilles. Pour d'autres, il s'agirait d'une dentine dysplasique au sein de laquelle les calcifications correspondraient à des cristaux d'apatite [9].

L'histogénèse de cette tumeur est encore discutée ; il faut noter que par ses activités histoenzymologiques comme par son ultrastructure, elle s'apparente au stratum intermedium du bourgeon dentaire. Ainsi, proche parent de la tumeur de Pindborg avec laquelle elle peut d'ailleurs s'associer, elle serait constituée de cellules préaméloblastiques capables de sécréter une substance *amyloid-like* de structure voisine de la matrice de l'émail [3].

Devant la nature purement bénigne de la tumeur, une simple énucléation chirurgicale avec extraction de la dent impliquée semble être suffisante comme traitement. Les récurrences après énucléation sont rares [10].

Références

1. Regezi JA, Kerr DA, Courtney RM. Odontogenic tumors: analysis of 706 cases. *J Oral Surg* 1978;36:771-8.
2. Philipsen HP, Reichart PA. The adenomatoid odontogenic tumour: ultrastructure of the tumour cells and non-calcified amorphous masses. *J Oral Pathol Med* 1996;25:491-6.
3. Lee JK, Lee KB, Hwang BN. Adenomatoid odontogenic tumor: a case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2000;58:1161-4.
4. Philipsen HP, Birn H. The adenomatoid odontogenic tumour. Ameloblastic adenomatoid tumour or adeno-ameloblastoma. *Acta Pathol Microbiol Scand* 1969;75:375-98.
5. Philipsen HP, Samman N, Ormiston IW, Reichart PA. Variants of the adenomatoid odontogenic tumor with a note on tumor origin. *J Oral Pathol Med* 1992;21:348-52.
6. Konouchi H, Asaumi JI, Yanagi Y, Hisatomi M, Kishi K. Adenomatoid odontogenic tumor: correlation of MRI with histopathological findings. *Eur J Radiol* 2002;44:19-23.

7. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu OX. Adenomatoid odontogenic tumor: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med* 1991;20:149–58.
8. Philipsen HP, Srisuwan T, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumor mimicking a periapical (radicular) cyst: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;94:246–8.
9. Chomette G, Auriol M. Tumeurs odontogéniques. In: Chomette G, Auriol M, editors. *Histopathologie buccale et cervico-faciale*. Paris: Masson; 1985. p. 61.
10. Olgac V, Koseoglu BG, Kasapoglu C. Adenomatoid odontogenic tumor: a report of an unusual maxillary lesion. *Quintessence Int* 2003;34:686–8.