



Reçu le :  
13 novembre 2008  
Accepté le :  
27 mai 2011  
Disponible en ligne  
13 juillet 2011

## Améloblastomes des mâchoires. Analyse rétrospective de 1994 à 2007

Ameloblastoma of the jaws. A retrospective analysis from 1994 to 2007

B. Ruhin-Poncet<sup>a,b,\*</sup>, A. Bouattour<sup>b</sup>, A. Picard<sup>b,c</sup>, P. Menard<sup>a</sup>, F. Capron<sup>d</sup>, J.-C. Bertrand<sup>a</sup>

<sup>a</sup> Service de stomatologie et de chirurgie maxillofaciale (Pr Bertrand), hôpital Pitié-Salpêtrière, assistance publique des Hôpitaux de Paris, université Pierre-et Marie-Curie-Paris-6, 75013 Paris, France

<sup>b</sup> Inserm UMR S 872, service de biologie orofaciale et d'anatomopathologie (Pr Berdal), équipe 5, Les Cordeliers, université René-Descartes-Paris-5, 75006 Paris, France

<sup>c</sup> Service de chirurgie plastique et maxillofaciale (Pr Vazquez), hôpital Armand-Trousseau, assistance publique des Hôpitaux de Paris, université Pierre-et Marie-Curie-Paris-6, 75013 Paris, France

<sup>d</sup> Service d'anatomopathologie et d'histologie (Pr Capron), hôpital Pitié-Salpêtrière, assistance publique des Hôpitaux de Paris, université Pierre-et Marie-Curie-Paris-6, 75013 Paris, France

Disponible en ligne sur

 ScienceDirect  
www.sciencedirect.com

### Summary

**Introduction.** Ameloblastomas and keratocysts are the most frequent epithelial odontogenic tumors of the jaws. They have a high recurrence rate. This retrospective study reviews the features of ameloblastomas operated on in our unit from 1994 to 2007.

**Patients and methods.** The studied parameters were sex, ethnic origin, age at diagnosis, clinical signs, radiographic presentation, site distribution, histological type, treatment, and follow-up records.

**Results.** One hundred and sixteen patients were included (with 239 surgical samples). The mean age was 36 years, with a majority of Europeans, 60% of multilocular radiolucent lesions with root resorption, mandibular location (93%). Twenty-one percent of the patients presented with an impacted tooth, the third molar in 79% of cases. Fifty percent of the lesions were from 5 to 13 cm in length, 10% longer than 13 cm. The most common histological type was follicular ameloblastoma. Patients were treated by enucleation in 82% of cases and radical mandibular resection with reconstruction in 11% of cases. The follow-up was documented for 96% of the patients with a 44% recurrence rate. Seventy-four percent of patients with a double recurrence presented with a "follicular" ameloblastoma.

**Discussion.** We prefer a well-performed enucleation which preserves surrounding bone. The high rate of follicular type recurrence should

### Résumé

**Introduction.** L'améloblastome est, avec le kératocyste, la plus fréquente des tumeurs épithéliales odontogènes des mâchoires. Son problème est la propension à récidiver. Cette analyse rétrospective décrit les caractéristiques des améloblastomes opérés dans le service de 1994 à 2007.

**Patients et méthode.** Les paramètres étudiés ont été : sexe, origine ethnique, âge de découverte, signes cliniques, aspect radiologique, localisation anatomique, type histologique, traitement et suivi.

**Résultats.** Cent seize patients ont été répertoriés (239 pièces opératoires). L'âge moyen était de 36 ans. Il s'agissait majoritairement d'européens, présentant le plus souvent une lésion radioclaire multiloculaire associée à une résorption radiculaire. Quarante-treize pour cent des cas étaient mandibulaires. Dans 21 % des cas une dent était incluse, une dent de sagesse dans 79 % des cas. La moitié des lésions mesuraient entre 5 et 13 cm, 10 % dépassaient 13 cm. L'améloblastome était le plus souvent folliculaire. Le traitement a été une énucléation dans 82 % des cas et une mandibulectomie avec reconstruction dans 11,6 % des cas. Quarante-seize pour cent des patients ont été suivis. Quarante-quatre pour cent des patients ont récidivés ; 75 % des doubles récidives avaient une composante folliculaire.

**Discussion.** Nous prônons le recours à une énucléation bien conduite conservatrice du capital osseux : le fort taux de récidive

\* Auteur correspondant.

e-mail : blandine.ruhin@psl.aphp.fr (B. Ruhin-Poncet).

more systematically lead to a combined treatment: periosteotomy and tooth extraction. Our data was compared with previously published large series.

© 2011 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

**Keywords:** Ameloblastomas, Maxilla, Mandible

## Introduction

Les tumeurs odontogènes (TO) ont pour origine des éléments épithéliaux ectomésenchymateux et/ou mésenchymateux qui participent à la formation de la dent. Elles ont été classées par l'Organisation mondiale de la santé (OMS) [1] et par la dernière édition de la classification histologique des tumeurs odontogènes [2].

Parmi ces TO, l'améloblastome occupe une place à part en raison de sa fréquence, son caractère bénin, et son potentiel récidivant. Ces améloblastomes se divisent en améloblastomes intra-osseux (centraux) et tissulaires (périphériques). Il existe, par ailleurs, différents types histologiques d'améloblastomes (folliculaires, kystiques, unikystiques, plexiformes et mixtes...). Les améloblastomes ont une forte tendance à récidiver du fait de la présence de cellules tumorales satellites à leur périphérie ; ils peuvent même exceptionnellement métastaser.

L'objectif de cette étude était de répertorier l'ensemble des améloblastomes pris en charge dans notre département sur une période donnée pour en étudier le profil et le taux de récurrence.

## Patients et méthodes

Pour cette étude rétrospective, l'ensemble des dossiers et des échantillons histologiques des patients qui ont présenté un améloblastome sur la période allant de 1994 à 2007, a été recensé parmi la population adulte du département de stomatologie et chirurgie maxillofaciale et le service d'anatomopathologie de notre groupe hospitalier. Les données cliniques et pathologiques ont été colligées pour chaque patient : âge à la première consultation, sexe, origine ethnique, symptômes, présentation radiographique, site anatomique, taille, type histologique, traitement, suivi et récurrence éventuelle.

Concernant le site anatomique susceptible d'être lésé, le maxillaire était divisé en trois régions anatomiques : antérieure, prémolaire et molaire. De la même façon, la mandibule concernée était divisée en six régions anatomiques : parasymphiso-symphysaire, branche horizontale, angle, ramus ou branche montante, processus coronoïde et base du crâne. L'analyse de l'ensemble des données utilisait la version 2 du programme statistique Sigla Tlot® (Systat, San Jose,

du type folliculaire doit associer plus systématiquement périosteotomie et avulsions dentaires. Nos données ont été comparées à celles de la littérature.

© 2011 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

**Mots clés :** Améloblastomes, Maxillaire, Mandibule

CA, États-Unis). Les statistiques descriptives et les graphiques étaient inspirés de ceux proposés par les concepteurs.

## Résultats

### Nombre de patients

Pendant cette période de 13 ans (1994–2007), un total de 239 échantillons histologiques d'améloblastomes des mâchoires ont été collectés, correspondant à 116 patients, étant donné les cas de récurrences. Deux patients ont été perdus de vue : l'un après deux ans et l'autre après 13 ans.

### Âge de découverte

Au moment du diagnostic, l'âge des patients était compris entre 11 et 88 ans, avec un âge moyen de 36,4 ans. La plupart des patients (55 cas ; 48 %) se situaient entre 20 et 40 ans, alors que 34 % des patients avaient plus de 40 ans et 18 % moins de 20.

### Âge de découverte et sexe

Le suivi permettait d'inclure 62 hommes (53 %) et 54 femmes (47 %) avec un ratio homme/femme de 1,15. Vingt-et-un pour cent des hommes étaient âgés de 11 à 20 ans, 41 % entre 20 et 40 ans et 38 % de plus de 40 ans. Treize pour cent des femmes étaient âgées de 11 à 20 ans, 57 % entre 20 et 40 ans et 30 % de plus de 40 ans.

### Origine ethnique

Dans notre étude, il y avait une majorité d'Européens (50 %). D'autres groupes ethniques étaient notés : Noirs-Africains (26 %), Maghrébins (12 %) et personnes d'autres continents (Indiens, Îles Caraïbes et Amérique du Sud) (12 %).

### Signes de découverte et symptômes

Les premiers symptômes sont apparus entre un et cinq ans avant la première consultation hospitalière. La plupart des 239 améloblastomes recensés était asymptomatique (60 %). La douleur clinique la plus fréquente était la douleur (18 %). Les autres signes cliniques révélateurs étaient le déplacement dentaire (15 %), l'inflammation locorégionale (maxillomandibulaire et faciale) (12 %) et le saignement endobuccal (2 %).

## Caractéristiques initiales radiographiques

Dans notre série, 69 des 116 patients présentaient une lésion radioclaire multiloculaire (60 %) et 47 patients (40 %) une lésion radioclaire uniloculaire. Les détails concernant la présentation radiographique de ces patients sont résumés dans le [tableau I](#). Les lésions mesuraient moins de 5 cm chez 46 patients (40 %), de 5 à 13 cm chez 59 patients (50 %) et plus de 13 cm chez 11 patients (10 %). Ce dernier groupe était qualifié d'améloblastome « géant », car présentant une taille supérieure à une moitié de mandibule.

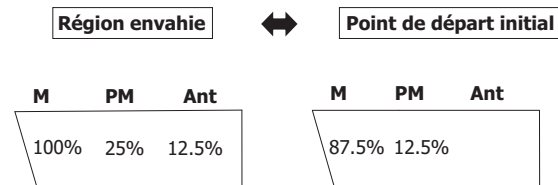
Concernant la relation entre taille tumorale et résorption radriculaire, 63 % des tumeurs (29 sur 46) dont la taille était inférieure à 5 cm étaient associées à des résorptions dentaires radiculaires. Cela était identique (63 % ; 37 sur 59) dans le groupe des 5 à 13 cm, et plus important dans le groupe de plus de 13 cm (8 sur 11 ; 73 %) sans différence statistique significative.

## Localisation anatomique

La plupart des cas étudiés (114 cas ; 98 %) étaient centraux (intra-osseux). Seuls deux cas (2 %) étaient des améloblastomes périphériques (intratissulaires).

Dans cette étude, les améloblastomes étaient plus communément localisés à la mandibule (108 cas ; 93 %) qu'au maxillaire (huit cas ; 7 %) avec un ratio mandibule/maxillaire de 14 pour 1. Dans 50 cas (49 %), le côté droit était impliqué ; dans 47 cas (40 %), le côté gauche était impliqué et dans 12 cas (11 %) la tumeur était médiane.

La [fig. 1](#) montre, qu'au maxillaire, la région molaire est finalement envahie dans 100 % des cas et que la région prémolaire et la région antérieure sont moins concernées avec respectivement 25 % et 12,5 % d'envahissement. Aucun cas maxillaire n'a été noté comme envahissant la base du crâne. Les [tableau II](#) et [fig. 2](#) montrent l'extension mandibulaire de la tumeur centro-osseuse, de son point initial vers les autres secteurs anatomiques.



**Figure 1.** Cartographie schématique des secteurs maxillaires envahis (à gauche) et des points de départ améloblastiques maxillaires (à droite). Ant : région antérieure ; PM : région prémolaire ; M : région molaire.

## Types histologiques

La relecture des lames colorées à l'hématoxyline et l'éosine permettait une réévaluation du diagnostic et une reclassification des tumeurs selon la classification de l'OMS [1,2]. Tous les améloblastomes étudiés étaient bénins ; un cas présentait des métaplasies malpighiennes focalisées ; il n'y a pas eu de cas de carcinome améloblastique avec des critères cytologiques de malignité.

Dans les tumeurs récidivantes, l'histologie de la tumeur initiale était comparée à l'histologie de la tumeur récidivante qui constituait alors un cas supplémentaire. La tumeur récidivante n'était pas toujours du même type histologique que la tumeur initiale. Plus de détails sont précisés dans le [tableau III](#). Concernant la résorption interradiculaire et le type histologique, le [tableau III](#) montre que la résorption radiculodentaire était trouvée dans 56 % des cas d'améloblastomes folliculaires (21 sur 37), 66 % des types kystiques (22 sur 33) et 59 % des types folliculaires et kystiques (19 sur 32), sans différence statistiquement significative.

## Localisation anatomique et type histologique

Il n'y avait pas de corrélation évidente entre la localisation anatomique et le type histologique des améloblastomes ([fig. 3](#)).

**Tableau I**

Données radiographiques des 216 cas étudiés.

Données radiographiques	Nombre de patients	Pourcentage
Résorption radriculaire dentaire (rhizalyse)	71	61 % des patients
Dent incluse	24 (3 <sup>e</sup> molaire dans 79 %)	21 % des patients
Améloblastome uniloculaire	47	40 % des patients
	22 avec rhizalyse	47 % des types uniloculaires
	14 avec dent incluse	31 % des rhizalyses en cas d'améloblastome
		58 % des types uniloculaires
Améloblastome multiloculaire	69	58 % des dents incluses en cas d'améloblastome
	47 avec rhizalyse	60 % des patients
		68 % des types multiloculaires
		9,8 % des des rhizalyses en cas d'améloblastome
	10 avec dent incluse	42 % des types multiloculaires
		41 % des dents incluses en cas d'améloblastome

**Tableau II**  
**Principe de l'extension mandibulaire des 108 cas mandibulaires : du point de départ initial à l'invasion des autres secteurs.**

Point de départ tumoral initial		Invasion des autres secteurs	
Secteur concerné	Nombre de cas	Secteurs envahis	Nombre de cas
Symphyse	15	S	2
		S+2PS	2
		S+2PS+HB	3
		S+2PS+2HB	7
		S+2PS+2HB+2A	1
Parasymphyse	7	PS	2
		2PS	2
		PS+HB	2
		PS+HB+A+R	1
Secteur prémolaire	12	HB	6
		HB+PS	4
		HB+2PS	2
Secteur prémolaire et molaire	22	HB	5
		HB+PS	4
		2HB+2PS	4
		HB+A	2
		2HB+2PS+2A	1
		HB+A+R	3
		HB+A+R+C	1
HB+A+R+C+CB	2		
Secteur molaire	15	HB	4
		HB+A	6
		PS+HB+A	1
		HB+A+R	2
		PS+HB+A+R	1
		PS+HB+A+R+C+	1
		BC	0
3 <sup>e</sup> molaire et angle	14	HB+A	6
		HB+A+R	4
		HB+A+R+C	2
		PS+HB+A+R+C	1
		HB+A+R+C+CB	1
Angle	23	A	1
		HB+A	1
		A+R	4
		HB+A+R	5
		A+R+C	6
		A+R+C+BC	1
		HB+A+R+C	1
		HB+A+R+C+BC	2
		PS+HB+A+R+C+	2
		BC	0

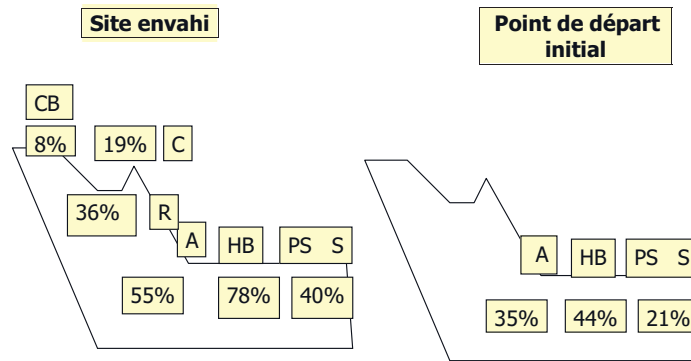
Dans la colonne de gauche, le point de départ tumoral initial est indiqué : symphyse mandibulaire, parasymphyse, secteur prémolaire, secteur molaire, troisième molaire et secteur angulaire. La colonne du milieu révèle le nombre de cas mandibulaires répertoriés pour chaque secteur. L'extension tumorale apparaît alors et les différentes formes d'envahissement sont notées dans la colonne de droite (symphysaire, parasymphysaire, branche horizontale, angle, ramus, coroné et base du crâne). S : symphyse ; PS : parasymphyse ; HB : branche horizontale ; A : angle ; R : ramus ; C : coroné ; CB : base du crâne.

### Taille et type histologique

Pour les améloblastomes inférieurs à 5 cm, la proportion de chaque type histologique apparaissait identique :

respectivement 28, 22 et 26 % des formes kystiques, folliculaires et folliculo-kystiques (fig. 4A).

Pour les améloblastomes compris entre 5 et 13 cm, la proportion de chaque type histologique était quasi similaire :



**Figure 2.** Cartographie mandibulaire des différents sites envahis (à gauche) et cartographie corrigée en fonction du point de départ initial de l'améloblastome (à droite). S : symphyse ; PS : parasymphyse ; HB : branche horizontale ; A : angle ; R : ramus ; C : coroné ; CB : base du crâne.

**Tableau III**  
Distribution des types histologiques des 114 améloblastomes centraux étudiés.

Type histologique	Nombre de cas	Pourcentage (%)
Améloblastome folliculaire	36	31,0
Améloblastome mixte folliculo-kystique	29	25,0
Améloblastome kystique	28	24,1
Améloblastome unikystique	5	4,3
Améloblastome granuleux	4	3,4
Améloblastome plexiforme	3	2,6
Améloblastome mixte folliculaire et plexiforme	3	2,6
Améloblastome mixte folliculo-kystique et plexiforme	3	2,6
Améloblastome desmoplasique	1	0,9
Améloblastome acanthomateux	1	0,9
Améloblastome basaloïde	1	0,9
Améloblastome associé à un kératokyste	11	9,9
Métaplasie malpighienne	5	4,3
Total	114	100 %

respectivement 34, 30, 22 % des kystiques, des folliculaires et des folliculo-kystiques (fig. 4B).

Au contraire, pour les améloblastomes géants (de plus de 13 cm), le type histologique était exclusivement folliculaire (cinq cas ; 45 %) ou folliculo-kystique (six cas ; 55 %) (fig. 4C).

## Traitement

Un total de 197 interventions chirurgicales étaient réalisées pendant ces 13 années : 161 énucléations (82 %) sur 91 patients (83 %), neuf mandibulectomies non interromptrices (4,5 %), 27 mandibulectomies interromptrices (13,7 %), sans reconstruction (quatre interventions), ou avec reconstruction (23 interventions).

Les énucléations constituaient l'intervention chirurgicale prédominante correspondant à 82 % de l'ensemble des 197 interventions chirurgicales.

Quarante-trois patients (39,4 %) ne bénéficiaient que d'une seule énucléation alors que 16 patients (14,7 %) bénéficiaient de deux énucléations et que 14 patients (12,9 %) avaient plus de trois énucléations. Les 39 patients restants bénéficiaient

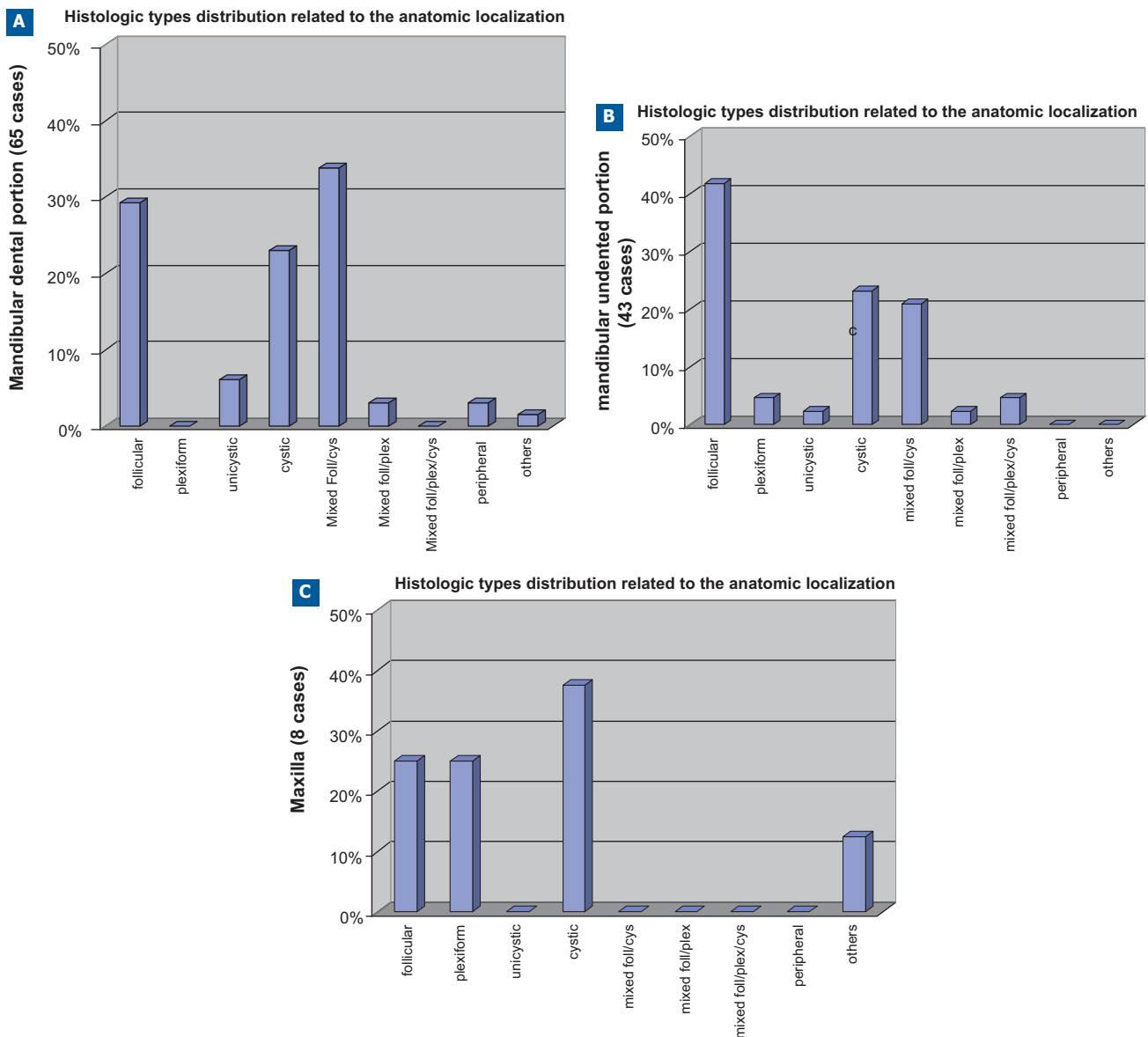
d'une énucléation avant une chirurgie non interromptrice ou interromptrice.

Une mandibulectomie non interromptrice était réalisée chez seulement neuf patients (7,75 % des 116 patients). Dans ce sous-groupe, cinq patients ont eu une première énucléation puis une mandibulectomie alors que trois patients ont bénéficié directement d'une résection osseuse segmentaire.

Une mandibulectomie interromptrice était réalisée chez 27 patients (23 % des 116 patients). Dans ce sous-groupe, 13 patients ont eu une énucléation initiale. Parmi eux, 23 patients ont ensuite eu une reconstruction mandibulaire (six greffons iliaques, deux lambeaux libres iliaques, 20 lambeaux libres de péroné) et quatre patients n'ont pas eu de chirurgie reconstructrice.

## Suivi

Presque tous les patients opérés (109 ; 96 %) ont été suivis après leur dernier traitement et ce pour une période comprise entre six mois et 13 ans (avec une moyenne de cinq ans).



**Figure 3.** Distribution des types histologiques en fonction de la localisation anatomique. **A.** Dans le cas d’une extension mandibulaire (symphyse, parasymphyse et branche horizontale). **B.** Dans le cas de la portion édentée de la mandibule (angle, ramus et coroné). **C.** Dans le cas du maxillaire.

**Récidive**

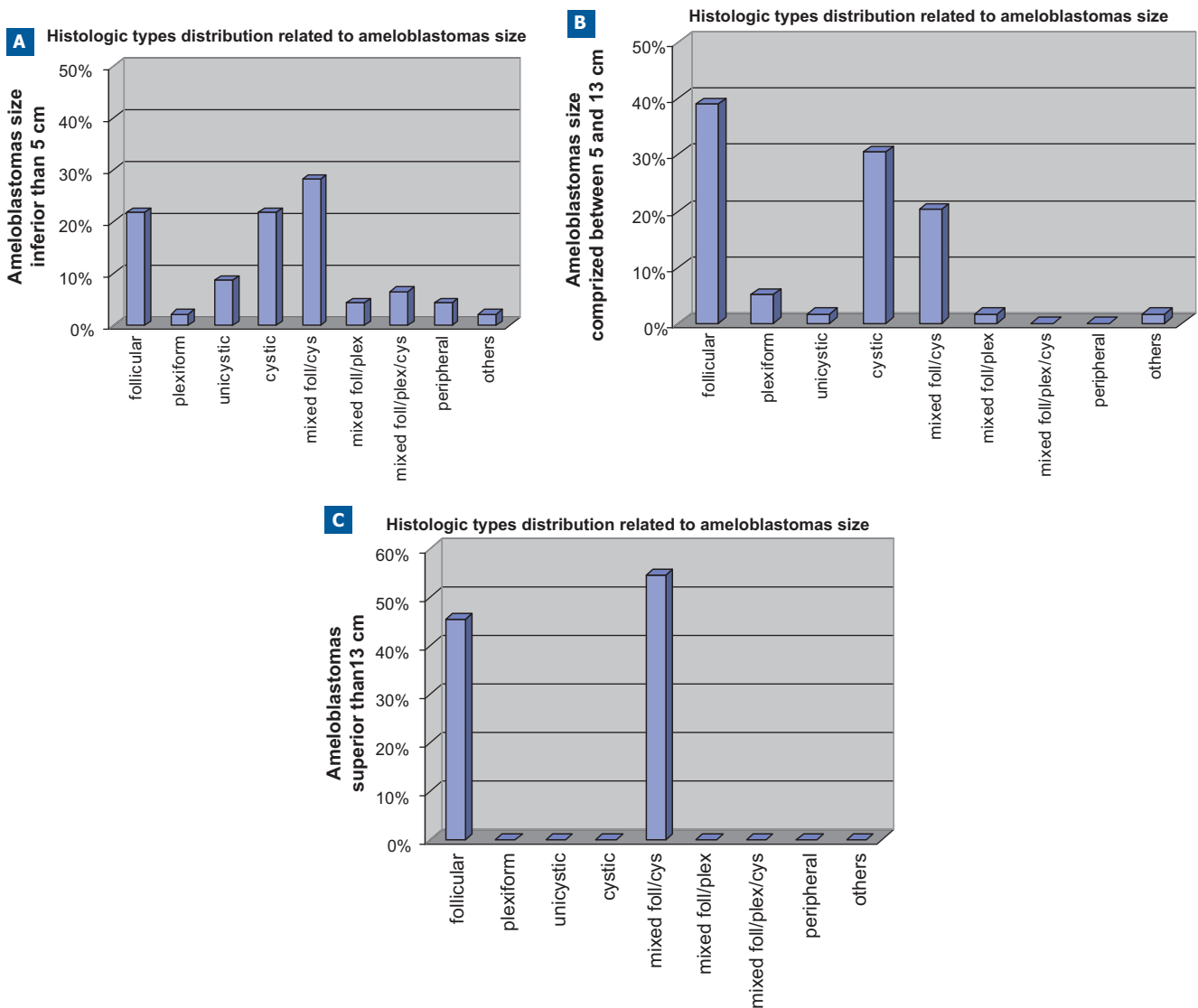
Sur les 109 patients suivis, 61 patients (56 %) n’ont pas eu de récidive et 48 patients (44 %) ont eu une récidive : 54 % à cinq ans postopératoires, 36 % à dix ans postopératoires et 9,5 % 15 ans après l’intervention.

Si l’on compare « type histologique » et « récidive », une ou plusieurs récidives étaient possibles. Une seule et unique récidive est apparue dans 15 cas (13 %) : parmi ces récidives, le type histologique était folliculaire cinq fois, kystique cinq fois, folliculo-kystique quatre fois et un cas était plexiforme. Plus de deux récidives sont apparues chez 46 patients (40,5 %) : parmi elles, 19 cas étaient folliculo-kystiques (41 %) et 16 cas folliculaires (34 %).

Concernant l’améloblastome unikystique (cinq cas dans notre étude), un seul cas n’a pas récidivé, deux cas ont présenté une récidive et deux cas ont eu plus de deux récidives.

**Discussion**

Par notre étude, nous souhaitons insister sur la nécessité de diviser les améloblastomes en multikystiques (ou solides), unikystiques et périphériques étant donné ce que cela implique au niveau de l’attitude chirurgicale et du pronostic. En fait, le pronostic pour les améloblastomes unikystiques et périphériques est bien meilleur après une intervention



**Figure 4.** Distribution des types histologiques en fonction de la taille de l'améloblastome. **A.** Dans le cas d'une taille inférieure à 5 cm. **B.** Dans le cas d'une taille comprise entre 5 et 13 cm. **C.** Dans le cas d'une taille supérieure à 13 cm.

chirurgicale limitée conservatrice comme l'énucléation, que pour les améloblastomes multikystiques.

La taille de la tumeur est un autre critère que nous avons étudié en corrélation avec l'histologie.

Dans notre série, il existe une corrélation entre les améloblastomes géants et le type folliculaire. Cela n'a jamais été décrit dans la littérature au préalable.

La résorption radiculaire dentaire a également été étudiée quelle que soit la taille de la tumeur. Elle était plus fréquente dans de volumineuses tumeurs (73 % de résorption radiculaire dans les tumeurs de plus de 13 cm). Cette relation n'a également jamais été rapportée.

D'autres paramètres étudiés sont relativement identiques à ceux trouvés dans la littérature en dehors de notre taux de récurrence estimé, dans notre étude, à 44 %.

### Fréquence relative des améloblastomes

C'est la première série aussi importante rapportée en France et en Europe (*tableau IV*). Dans notre étude, les améloblastomes sont les plus fréquentes des tumeurs odontogènes (64 % des tumeurs odontogènes en excluant les tumeurs odontogènes kératocystiques) alors que les odontomes ne correspondent qu'à 3 % des tumeurs odontogènes.

La fréquence élevée des améloblastomes et la fréquence faible des odontomes correspondent au constat fait dans les séries africaines, ces dix dernières années [3-8] (*tableau IV*). Cependant, en Amérique du Nord aussi bien qu'au Mexique, au Chili, qu'en Asie ou en Estonie, les améloblastomes présentent une fréquence moindre (entre 17,8 et 23,7 %) que les odontomes (entre 44 et 75,9 %) [9-12] (*tableau IV*).



**Tableau IV**  
**Revue de la littérature rapportant les séries d'améloblastomes publiées entre 1990 et 2007.**

Continent	Pays	Auteurs, année de publication (période concernée)		Nombre d'améloblastomes	Pourcentage des tumeurs odontogènes (%)	
Europe	France	Notre série	2007 (1994-2007 : 13 années)	116	35	
	Italie	Becelli	2002 (1977-1998 : 21 années)	60	NI	
	Royaumes-Unis	Jones <sup>a</sup>	2006	2	4,9	
	Grèce	Rapidis	2004	11	NI	
	Estonie	Tamme	2004 (1977-2001 : 24 années)	19	25,3	
	Suisse	Zwahlen	2002 (1986-2000 : 15 années)	26	NI	
Amérique du Nord	Californie	Buchner	2006 (1984-2004 : 20 années)	127	1,7	
	Canada	Daley	1994	60	13,52	
	Mexique	Mosqueda-Taylor	1997	83	23,7	
Amérique du Sud	Mexique	Ledesma-Montes	2007	163	22,7	
	Jamaïque	Ogunsalu	2003 (1980-1995 : 15 années)	47	67	
	Chili	Ochsenius	2002 (1975-2000 : 25 années)	74	20,4	
	Argentine	Guerrisi <sup>a</sup>	2007 (1990-2004 : 14 années)	28	18,3	
	Brésil	Santos	2001 (1970-1999 : 30 années)	38	30,7	
		Fernandes	2005 (1954-2004 : 51 années)	154	45,3	
Afrique du Nord	Maroc	Chala	2002 (1981-1999 : 18 années)	16	NI	
Afrique	Nigéria	Adebayo <sup>a</sup>	2002 (1979-1998 : 19 années)	42	54	
		Adebayo	2005 (1979-1998 : 19 années)	233	73	
		Adebiyi	2004 (1973-1993 : 21 années)	174	83,3	
		Adebiyi	2006 (15 années)	77	NI	
		Ajayi	2004 (1980-2003 : 23 années)	45	48,9	
		Aregbesola	2005 (1991-2001 : 10 années)	11	55	
		Arotiba	1997 (1980-1994 : 14 années)	21	16	
		Ladeinde	2005 (1980-2003 : 13 années)	201	63	
		Odukoya	1995 (1972-1993 : 21 années)	169	58,5	
		Olaitan	1993 (1972-1992 : 20 années)	315	NI	
	Olaitan <sup>a</sup>	1996	30	N		
	Ghana	Parkins	2007 (1996-2003 : 8 années)	58	93,6	
	Côte d'Ivoire	Crezoit	2003 (1992-2000 : 8 années)	30	NI	
	Tanzanie	Simon	2005 (1999-2003 : 4 années)	93	80,1	
	Zimbabwe	Chidzonga	1996	79	10	
	Moyen Orient	Israël	Ulmansky <sup>a</sup>	1999	2	11,1
		Jordanie	Al Khateeb	2003	6	24
Turquie		Tanrikulu <sup>a</sup>	2004	2	11,7	
		Günhan	1990	149	36,5	
Asie	Chine	Olgac	2005 (1971-2003 : 32 années)	133	25	
		Jing	2007 (1952-2004 : 52 années)	661	40,3	
		Lu	1998	445	58,6	
	Corée	Kim	2001 (1989-1999 : 10 années)	71	NI	
	Sri-Lanka	Okada	2007 (1996-2002 : 6 années)	158	69,8	
	Japon	Tanaka <sup>a</sup>	1999	39	20	
		Sato <sup>a</sup>	1997	34	10	
	Taiïwan	Chen <sup>a</sup>	1998	29	60	

NI : non indiqué.

<sup>a</sup> Séries d'enfants et d'adolescents.

Au contraire, nous observons une importante différence entre notre série et celles d'Odukoya, Lu et Jing [13-15] dans lesquelles le pourcentage d'améloblastomes était respectivement de 40,3, 58,6 et 62,7 % (tableau IV). Cela peut être expliqué par le fait que l'incidence des odontomes était généralement sous-estimée étant donné leur caractère asymptomatique et leur prise en charge extrahospitalière.

### Âge de découverte

Dans cette étude, la fourchette d'âge observée allait de 11 à 90 ans avec un pic d'incidence dans la quatrième décennie ( $36 \pm 1,6$  années) ce qui est comparable aux données des larges séries nigériennes [3,4,6-9], brésiliennes [10], chiliennes [11], chinoises, [12], tanzaniennes [13] et coréennes [14].



Il y avait une prédilection de cas entre 20 et 40 ans (41 % pour les hommes et 57 % pour les femmes). Cette variation concernant l'âge moyen de découverte s'explique par le fait que la tumeur grossit très progressivement, faisant des améloblastomes, des tumeurs insidieuses, longtemps silencieuses pour lesquelles l'âge de découverte est souvent retardé.

Le faible taux de patients âgés de moins de 16 ans peut s'expliquer par le fait que notre service de chirurgie maxillo-faciale se restreint aux patients adultes, et que le jeune patient ne présente que des petites lésions qui peuvent être traitées par leur dentiste (ces cas échappent alors au suivi hospitalier).

### Sexe et âge de découverte

Dans cette étude, les hommes sont légèrement plus affectés que les femmes avec un âge moyen de  $36 \pm 1,6$  années ce qui correspond aux données de la littérature [4,6-8,12,14].

### Distribution de l'origine ethnique

La répartition parmi les groupes ethniques peut s'expliquer par le fait que Paris comporte une population mosaïque et par le fait que les étrangers viennent à Paris pour se faire prendre en charge de façon spécifique.

### Sexe et distribution ethnique

Il y a une prédilection masculine bien plus marquée parmi les patients avec un améloblastome dans les populations chinoises et nigériennes [3,6,8,12] alors qu'il existe une faible prédilection des femmes dans d'autres séries sud-américaines [10,11] et turques [16]. Dans notre série, il est impossible de conclure rigoureusement au niveau de la prévalence en fonction du genre sexuel.

### Signes et symptômes

Dans notre série, la plupart des lésions était asymptomatiques (60 %) mais certains patients présentaient des douleurs (18 %), des déplacements dentaires (15 %), une inflammation (12 %) et, moins souvent, des gingivorragies du fait des ulcérations muqueuses (2 %) [9]. Nos données s'opposent à celles de la littérature [16]. Cette différence peut être due au manque d'objectivité des patients répondant aux interrogations du praticien concernant les signes d'apparition et les symptômes. Il n'y a par ailleurs pas de rapport avec la taille tumorale.

### Localisation anatomique

Le site anatomique le plus courant reste la mandibule avec une prédilection pour sa portion postérieure. Comme dans d'autres séries de la littérature, l'améloblastome central intra-osseux prédomine (114 cas ; 98 %). Le nombre d'améloblastomes périphériques est faible avec deux cas recensés sur 116 (1,7 %) : cela équivaut au 1 % retrouvé par Adebisi et al. [4] mais bien loin des 13 cas (28,9 %) de Buchner et al. (17 %).

Les tumeurs sont bien plus communes à la mandibule (93 %) qu'au maxillaire (7 %).

C'est le même constat dans les populations noires-africaines et européennes [4] approchant de 100 % dans certaines séries d'enfants et adolescents [5]. Dans la littérature, il est souvent non spécifié si la tumeur implique une ou plusieurs régions anatomiques. De plus, lorsqu'elle existe, la classification anatomique varie d'un pays à l'autre, d'un auteur à l'autre. Il est ainsi très difficile de comparer les données de la littérature entre elles.

Nous avons ainsi souhaité classer nos différents cas en fonction du point de départ tumoral initial et l'extension mandibulaire qui s'en suit (comme spécifié sur la *fig. 2*).

Seuls 18,4 % des cas rapportés par Arotiba et al. [6] concernaient la région antérieure de la mandibule.

Pour nos 108 patients ayant des localisations mandibulaires (*tableau II*), 22 localisations (20 %) étaient antérieures (15 symphysaires et sept parasymphysaires) contre 18 (4 %) dans la série d'Arotiba et al. [6] ; 25 localisations (23,5 %) étaient intermédiaires contre 57,5 % et 70,1 % dans les séries nigériennes [4,5]. Enfin, nous avons trouvé 50 % de localisations postérieures (53 molaires et angulaires) (*tableau II*) ; cette fréquence est moindre si on la compare aux 90 % rapportés ailleurs dans la littérature [3,6,8,10-13,15-18]. Nos données sont similaires à celles de Buchner et al. [17] pour qui la portion postérieure de la mandibule est la localisation la plus commune.

Au maxillaire (*fig. 1*), 87,5 % des améloblastomes concernent le segment postérieur : bien que nous n'ayons pas trouvé de cas antérieur maxillaire, cette distribution maxillaire est en accord avec les séries de Ladeinde et al. [7] et de Gardner [19]. À la mandibule, il n'y a pas de cas isolé envahissant la branche montante ou le coroné : tous les cas ont pour point de départ une arcade dentée maxillaire ou mandibulaire (*tableau II* et *fig. 2*).

### Localisation anatomique et origine ethnique

La littérature montre une prédilection pour une localisation anatomique en fonction du groupe ethnique. Chez les africains, la région symphysaire est considérée comme un site anatomique préférentiel chez les enfants [5,6]. Nous pouvons, par ailleurs, garder à l'esprit que les patients africains tardent à se faire prendre en charge et présentent de volumineuses tumeurs. Ainsi, une majorité des patients (57,3 %) a des tumeurs limitées, soit à la région antérieure, soit à la région angulomandibulaire, avec des extensions variables dans les régions symphysaires ou parasymphysaires [6]. Néanmoins, les tumeurs à extension antérieure représentent seulement 15,2 % des cas contre 41,1 % des tumeurs intéressant à la fois les régions antérieures et postérieures [4]. Aussi, ces données ne confirment pas les données de la littérature, soulignant que la région symphysaire est la plus souvent affectée chez les patients africains.

Les résultats des séries américaines et canadiennes ont souligné la prédilection des envahissements molaires et ramiques [20].

Dans notre série, 7 % des améloblastomes concernent le maxillaire. Un taux similaire (2 à 8,5 %) a été rapporté en Afrique, au Brésil et en Asie [8,10,12].

Au contraire, pour d'autres, 16 à 22 % d'améloblastomes apparaissent au maxillaire [18,21]. L'origine ethnique serait la cause de ce taux plus élevé. D'un autre côté, l'environnement, de part la situation géographique, les mouvements migratoires, l'isolement et les échanges peuvent aussi expliquer cette différence.

L'hypothèse des conditions environnementales est renforcée par le fait que les améloblastomes rencontrés chez les noirs américains présentent la même distribution géographique sur les mâchoires que ceux concernant des caucasiens dans ce pays alors que les noirs africains ont tendance à développer des améloblastomes dans la portion antérieure des mâchoires [22].

### Présentation radiographique

La plupart de nos patients (60 %) présente une lésion radiologique multiloculaire alors que 40 % des patients présentent une lésion uniloculaire (tableau I) ; cela est en accord avec d'autres résultats [6,17]. De plus, Ajayi et al. [5] ont trouvé 40 patients de moins de 19 ans (89 %) avec des améloblastomes à variante multiloculaire.

Dans notre série, la résorption radiculaire dentaire est observée dans 61 % des cas (tableau I) : ce qui est bien au-delà des 19,7 % rapportés par Arotiba et al. [6]. Comme nous l'avons fait (tableau I), le même auteur remarquait une plus grande proportion de lésions multiloculaires présentant des résorptions radiculaires dentaires (66 %).

Dans notre série, les tumeurs ont une taille comprise entre 5 et 13 cm chez 50 % des patients.

Les très petites tumeurs ne sont pas visualisées dans notre service hospitalo-universitaire. Elles sont généralement prises en charge par des dentistes ou stomatologues ou chirurgiens maxillofaciaux libéraux et, de ce fait, ce groupe est sous-représenté dans notre série. Au contraire, les grandes tumeurs sont sur-représentées dans nos pays occidentaux (11 tumeurs de plus de 13 cm). Elles correspondent généralement à des patients étrangers, adressés à notre service, pour des chirurgies reconstructrices spécialisées microvascularisées.

### Type histologique

Il est fondamental de diviser les améloblastomes selon leur aspect macroscopique et histologique : multikystique, unikystique et périphérique [20]. En parfait accord avec Arotiba et al. [6] et Gardner [19], le type morphologique le plus commun dans notre série était l'améloblastome solide multikystique. Dans notre série, l'améloblastome unikystique représente seulement cinq cas sur 116 (4 %). Cette fréquence

se rapproche de celle reportée dans les autres séries de la littérature [4], mais semble bien éloignée du chiffre de 46 % rapporté par Buchner et al. [17].

Dans notre série, le type histologique le plus fréquemment retrouvé était l'améloblastome folliculaire. Aucun cas de carcinome améloblastique n'était reporté à la lumière des controverses concernant la définition même de l'améloblastome malin et du carcinome améloblastique. Le diagnostic d'améloblastome était parfois difficile : 29 patients sur 116 (25 %) ont été initialement adressés avec un faux diagnostic histologique. On peut également souligner que, dans certains cas, la détermination d'un type histologique prédominant est source d'erreur puisque l'analyse histologique précise doit porter sur l'ensemble de la pièce tissulaire, de façon à ne pas sous-estimer une forme composée (qui correspond dans notre série à 35 cas, soit 30 %) (tableau III).

Dans l'étude de Ladeinde et al., l'améloblastome folliculaire (62,6 %) était le type histologique le plus fréquent suivi par l'améloblastome plexiforme (22,4 %) et la variante mixte (14,9 %) [7].

Pour d'autres séries africaines, le type histologique prédominant était le type acanthomateux [4,8]. On peut d'ailleurs regretter que les types histologiques ne soient pas précisés dans la plupart des séries nigériennes [4-6].

### Situation anatomique et type histologique

Aucune corrélation significative n'a pu être trouvée entre les deux.

### Traitement

Dès lors qu'elle est possible, l'énucléation est le traitement de choix de façon à maintenir la continuité osseuse, le capital osseux et diminuer la morbidité. Une première énucléation concernait 94 patients ce qui correspond à 81 % des 116 patients (et 81,7 % de tous les 197 traitements chirurgicaux entrepris). Nous avons noté que les résections segmentaires étaient réalisées dans le cas d'améloblastomes volumineux (parce que l'envahissement osseux et l'impossibilité de le préserver sans risque élevé de récurrence), mais aussi en cas d'améloblastome multiloculaire inaccessible à l'énucléation [19,23].

Dans les séries africaines, la gestion chirurgicale de ces améloblastomes est le plus souvent radicale. Nous avons la même politique en matière d'améloblastomes volumineux, déjà avancés, provenant de pays étrangers.

### Suivi

Dans notre série, le taux de suivi est plus important que dans la littérature [3,19]. Cela nous autorise certainement à être beaucoup plus conservateur du fait de la possibilité de suivre nos patients et de détecter aisément une petite et accessible récurrence.

## Taux de récurrence

Ils ne sont pas toujours rapportés dans la littérature. Jing et al. [12] rapportent un taux de récurrence de 21,1 %. Dans notre série, durant cette période de 13 ans, le taux de récurrence a été de 55 % (45 % avec seulement une récurrence et 15 % avec plus de deux récurrences). Cela peut apparaître relativement élevé, mais il s'agit de la prise en charge de tumeurs odontogènes bénignes et nous préférons éviter d'emblée une chirurgie agressive délabrante lorsque c'est possible. L'énucléation constituait alors la première intervention à retenir, du fait de cet excellent suivi (97 % des patients). Jing et al. sont bien plus radicaux dans leur attitude thérapeutique [12].

## Type radiographique, indication chirurgicale et taux de récurrence

Dans notre série, le taux de récurrence était bien plus élevé dans les cas multiloculaires (60,7 %) que dans les cas uniloculaires (35 %) comme l'avait déjà noté Ueno [24].

## Taux de récurrence et type histologique

Une relation significative demeure entre la récurrence et le type histologique. Comme le soulignait Ueno [24] dans le cadre de la chirurgie conservatrice, le taux de récurrence était significativement plus élevé dans le type folliculaire (56,8 %) que dans le type plexiforme (32,4 %).

Bien qu'ils possèdent un bien meilleur pronostic après énucléation, les améloblastomes unikystiques (cinq cas dans notre série) sont capables de récurrencer ; ce constat va à l'encontre des données de la littérature qui considère souvent l'améloblastome unikystique comme une entité non récidivante dès lors qu'elle est énucléée en totalité [5,7,9,15,17].

## Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

## Remerciements

Au professeur Francis Guilbert (†), aux anciens et actuels collègues du département de stomatologie et chirurgie maxillofaciale.

## Références

- [1] Kramer IRH, Pindborg JJ, Shear M.. World Health Organization. International classification of tumours: histological typing of odontogenic tumours, Second edition, Berlin, Germany: Springer-Verlag; 1992. p. 182.
- [2] Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. Pathology and genetics of head and neck tumours. Lyon: IARC Press; 2005. p. 284.
- [3] Adebayo ET, Ajike SO, Adekeye EO. A review of 318 odontogenic tumours in Kaduna Nigeria. *J Oral Maxillofac Surg* 2005;63:811-9.
- [4] Adebisi KE, Odukoya O, Taiwo EO. Ectodermal odontogenic tumours: analysis of 197 Nigerian cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2004;33:766-70.
- [5] Ajayi OF, Ladeinde AL, Adeyemo WL, Ogunlewe MO. Odontogenic tumours in Nigerian children and adolescents - a retrospective study of 92 cases. *World J Surg Oncol* 2004;272:39-41.
- [6] Arotiba JT, Ogunbiyi JO, Obiechina AE. Odontogenic tumours: a 15-year review from Ibadan Nigeria. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1997;35:363-7.
- [7] Ladeinde AL, Ogunlewe MO, Bamgbose BO, Adeyemo WL, Ajayi OF, Arotiba GT, et al. Ameloblastomas: analysis of 207 cases in a Nigerian teaching hospital. *Quintessence Int* 2006;37:69-74.
- [8] Odukoya O. Odontogenic tumours: analysis of 289 Nigerian cases. *J Oral Pathol Med* 1995;24:454-7.
- [9] Olaitan AA, Adeola DS, Adekeye EO. Ameloblastomas: clinical features and management of 315 cases from Kaduna Nigeria. *J Craniomaxillofac Surg* 1993;21:351-5.
- [10] Fernandes AM, Duarte EC, Pimenta FJ, Souza LN, Santos VR, Mesquita RA, et al. Odontogenic tumours: a study of 340 cases in a Brazilian population. *J Oral Pathol Med* 2005;34:583-7.
- [11] Ochsenius G, Ortega A, Godoy L, Penafiel C, Escobar E. Odontogenic tumours in Chile: a study of 362 cases. *J Oral Pathol Med* 2002;31:415-20.
- [12] Jing W, Xuan M, Lin Y, Wu L, Liu L, Zheng X, et al. Odontogenic tumours: a retrospective study of 1642 cases in a Chinese population. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2007;36:20-5.
- [13] Simon EN, Merck MA, Vuhahula E, Ngassapa D, Stoelinga PJ. A 4-year prospective study on epidemiology and clinicopathological presentation of odontogenic tumours in Tanzania. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005;99:598-602.
- [14] Kim SG, Jang HS. Ameloblastomas: a clinical radiographical and histopathologic analysis of 71 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 2001;91:649-53.
- [15] Mosqueda-Taylor A, Ledesma-Montes C, Caballero-Sandoval S, Portilla-Robertson J, Ruiz-Godoy Rivera LM, Meneses-García A. Odontogenic tumours in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 1997;84:672-5.
- [16] Olgac V, Koseoglu BG, Aksakalli N. Odontogenic tumours in Istanbul: 527 cases. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2006;44:386-8.
- [17] Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM. Relative frequency of central odontogenic tumours: a study of 1,088 cases from Northern California and comparison to studies from other parts of the world. *J Oral Maxillofac Surg* 2006;64:1343-52.
- [18] Günhan O, Erseven G, Ruacan S, Celasun B, Aydintug Y, Ergun E, et al. Odontogenic tumors: a series of 409 cases. *Aust Dent J* 1990;35:518-22.
- [19] Gardner DG. Critique of the 1995 review by Reichart et al. of the biologic profile of 3677 ameloblastoma. *Oral Oncol* 1999;35:443-9.
- [20] Daley TD, Wysocki GP, Pringle GA. Relative incidence of odontogenic tumours and oral jaw cysts in Canadian population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1994;77:276-80.
- [21] Regezi JA, Kerr DA, Courtney RM. Odontogenic tumors: analysis of 706 cases. *J Oral Surg* 1978;36:771.
- [22] Sawyer DR, Mosadomi A, Page DG, Svirsky JA, Kekere-Ekun AT. Racial predilection of ameloblastomas? A probable answer from Lagos (Nigeria) and Richmond Virginia (USA). *J Oral Med* 1985;40:27-31.
- [23] Escande C, Chaîne A, Menard P, Ernenwein D, Ghoul S, Bouattour A, et al. A treatment algorithm for adult ameloblastomas according to the Pitié-Salpêtrière Hospital experience. *J Craniomaxillofac Surg* 2009;37:363-70.
- [24] Ueno S, Mushimoto K, Shirasu R. Prognostic evaluation of ameloblastomas based on histologic and radiographic typing. *J Oral Maxillofac Surg* 1989;47:11-5.