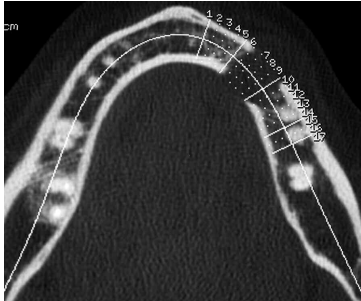


Améloblastome unikystique plexiforme mandibulaire : à propos d'un cas.

Mots clés :

Améloblastome
Tumeur odontogène
Récidive
Exérèse kystique



Plexiform unicystic ameloblastoma : a case report.

Keywords :

Ameloblastoma
Odontogenic tumour
Recurrence
Surgical excision

Victorin AHOSSI, Patrick LARRAS, Marion PARIS, Daniel PERRIN

Service d'Odontologie - CHU Dijon - France.

r é s u m é

Cette observation rapporte le cas d'une patiente de 50 ans, adressée pour une tuméfaction vestibulaire circonscrite et fluctuante persistante en regard de la région canine et prémolaire mandibulaire gauche (33 à 35), apparue après l'extraction de la seconde prémolaire gauche deux mois auparavant. L'anamnèse révèle une asthénie marquée, et l'absence d'amélioration clinique malgré une antibiothérapie prolongée. Une investigation radiographique comprenant un orthopantomogramme et une imagerie par tomodensitométrie est alors réalisée. Un prélèvement bactériologique également effectué, se révèle peu significatif. L'examen anatomopathologique de la biopsie-exérèse réalisée sous anesthésie générale conclue au diagnostic d'améloblastome unikystique plexiforme. Cette pathologie fait partie des tumeurs épithéliales bénignes au comportement agressif nécessitant un bilan général afin d'éliminer une autre localisation ainsi qu'un suivi régulier par l'odontologiste. En effet ce type d'améloblastome présente un caractère agressif et récidivant.

abstract

This paper describes the case of a 50-year-old patient addressed to the department concerning a persistent fluctuant, circumscribed buccal swelling in the lower left canine/premolar region (33-35). The swelling appeared following the extraction of the lower left second premolar two months previously. The medical history revealed multiple pathologies, marked fatigue and the absence of clinical improvement in spite of a prolonged course of oral antibiotics. We pursued investigations with a radiological survey, comprising an OPT (Panoramic X-ray) and CT Scan. A bacteriological sample was taken but lacked significant results. A biopsy for histo-pathological analysis was taken under general anesthesia and the diagnosis of plexiform unicystic ameloblastoma was confirmed. This pathological condition requires a general health examination in order to eliminate metastatic projections and a follow-up by a dental professional. Effectively, this pathology is typically aggressive and recurrence is frequent.



L'améloblastome est une tumeur odontogène bénigne développée à partir des débris épithé- liaux de Malassez (Martin-Duverneuil et Auriol, 2004). On distingue essentiellement deux types d'amé- loblastome : le type folliculaire et le type plexiforme. La forme unikystique plexiforme se différencie par une prolifération épithéliale qui a été décrite dans des kys- tes dentigères (Eversole et coll., 1984). On note une localisation prédominante dans les sites postérieurs. Sa prise en charge est un challenge pour l'odontologiste tant au niveau du geste chirurgical qui doit être le plus complet possible, qu'au niveau du suivi régulier du patient (Robinson et Martinez, 1997). En effet, l'a- méloblastome est caractérisé par une prolifération pathologique d'un épithélium odontogène dans un stroma fibreux, on le nomme tumeur bénigne à mal- ignité locale du fait de sa propension à envahir les tis- sus environnants et sa capacité de récidive après exé- rèse (Reichart et coll., 1995).

Observations

Cet article rapporte le cas d'une femme de 50 ans, adressée dans le service d'odontologie du CHU de Dijon par son chirurgien dentiste traitant pour la prise en charge d'une tuméfaction vestibulaire, d'apparition rapide en regard du site d'extraction de la première pré- molaire gauche (34), réalisée 2 mois auparavant, et complétée par un curetage alvéolaire pour l'exérèse d'une lésion apicale associée (Fig. 1 et 2).

L'anamnèse révèle de multiples antécédents médicaux à savoir une hypothyroïdie de Hashimoto, un état asth- matique, de l'ostéoporose, une maladie de Spid (syn- drome polyalgique idiopathique diffus avec des dou- leurs musculaires diffuses, des points douloureux précis sur les insertions tendineuses, une fatigue chronique et des troubles du sommeil) ainsi qu'un syndrome sec.

En l'absence de phénomènes algiques, la patiente se plaint d'une simple gêne fonctionnelle ainsi que d'une paresthésie labio-mentionnière homolatérale. Elle bénéfi- cie d'un traitement à l'amoxicilline depuis 72 heures à rai- son de 2 grammes par 24 h, après une tentative de drai- nage par le chirurgien dentiste traitant.

L'examen clinique confirme l'existence d'une voussure vestibulaire circonscrite, fluctuante et douloureuse au toucher (Fig. 3). Un test de vitalité réalisé sur la 35 reste négatif. La palpation ne retrouve aucune adéno- pathie. L'examen radiographique par orthopantomo- gramme complété par un cliché retroalvéolaire, montre l'existence d'une zone radio claire en regard du site édenté de 34, d'aspect ostéolytique, signant un retard

A meloblastoma is a benign tumor of dental ori- gin, and develops from the cellular debris of the Malassez layer (Martin-Duverneuil and Auriol, 2004). The unicystic plexiform type is reco- gnised by epithelial proliferation, a phenomenon that has also been described for cysts known as dentige- rous (Eversole et al., 1984). There is a marked preva- lence of proliferation in posterior sites. Treatment planning for the dental professional is a challenge, not only for the surgical procedure, which should be as complete as possible, but also in the regular fol- low-up of the patient (Robinson and Martinez, 1997). The classification is effectively that of a benign tumor, with local malignancy due to its propensity for invading surrounding tissue and its tendency to recur- rence after surgical removal (Reichart et al., 1995).

Observations

This paper describes the case of a 50-year-old female patient addressed to the hospital department by her dentist who had been treating her for a rapid- ly occurring swelling close to the site of the recently extracted lower left second premolar 34 two months previously (Fig. 1 and 2).

The medical history revealed multiple medical ano- malies, including Hashimoto's disease (hypothyroi- dism), asthma, osteoporosis, a SPID (diffuse idiopa- thic polyalgic syndrome, with diffuse muscular pain, precise painful areas at tendon insertions, chro- nic fatigue and disturbed sleep patterns) and a dry syndrome.

In the absence of pain, the patient complained simply of functional discomfort and a unilateral labio-men- tal paresthesia. She had been treated with amoxy- cillin for 72 hours, at a dose of 2g/24h, following a drainage attempt by the treating dentist.

The clinical examination confirmed the presence of a circumscribed labial swelling, fluctuant and painful to the touch (Fig. 3). A vitality test on the tooth 35 was negative. No cervical adenopathy was detected by palpation. The radiographic investigation compri- sing an OPT (Panoral X-ray) and a CT Scan revealed the presence of an extensive osteolytic lesion of 15 x 18 mm cross-section diameter height and situa-



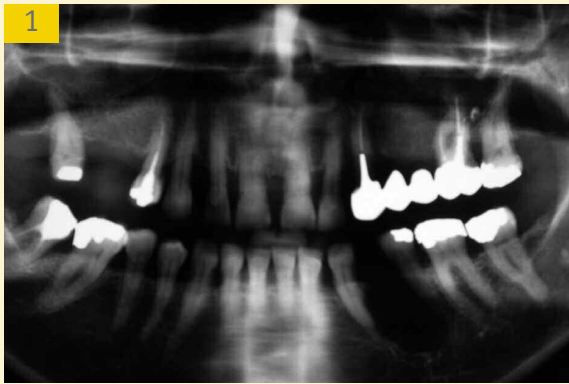


Fig. 1 : Image radiographique de la lésion située entre 33 et 35.
The radiographic investigation comprising an OPT.

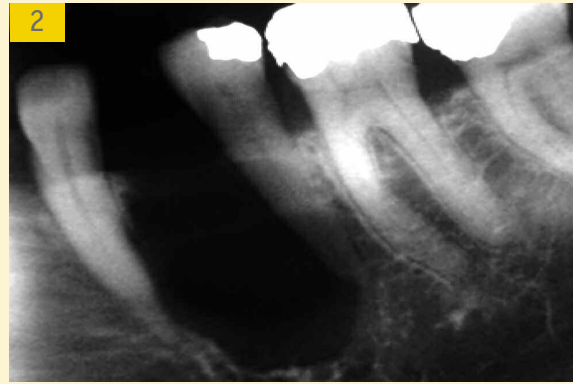


Fig. 2 : Image radiographique de la lésion située entre 33 et 35.
The radiographic investigation comprising an OPT.

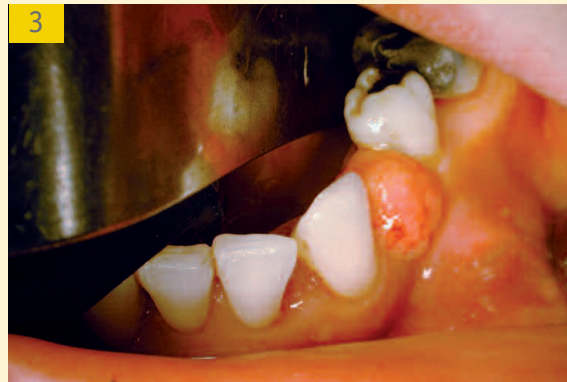


Fig. 3 : Aspect du site 34 peu de temps après l'extraction.
The site of the recently extracted lower left second premolar 34.

de cicatrisation osseuse possible ou la récurrence du foyer initial. Des clichés tomodensitométriques mandibulaires confirment l'existence d'une importante lésion ostéolytique de 15 mm de diamètre transverse pour 18 mm de hauteur située entre 33 et 35. Les coupes coronales du scanner montrent également que les corticales vestibulaire et linguale sont soufflées (**Fig. 4 et 5**).

La prescription initiale est réadaptée, à raison de 3 grammes par jour pendant 7 jours au vu de l'évolution de la lésion.

La patiente est revue pour une consultation de contrôle 9 jours plus tard. Malgré l'antibiothérapie, aucune évolution clinique notable n'est observée. De plus, un bourgeonnement crestal est apparu, et l'on note la persistance d'une paresthésie labio-mentonnière gauche ainsi que d'une gêne fonctionnelle.

Face à ce tableau clinique, le plan de traitement arrêté prévoit l'exérèse du foyer lésionnel, et l'avulsion des dents 33 et 35 présentant un rapport direct avec la lésion ostéolytique (**Fig. 6, 7 et 8**). L'indication d'a-

ted between the teeth 33 and 35. Coronal sections revealed that the cortical lingual and buccal walls of the mandible had been expanded (**Fig. 4 and 5**).

The initial prescription was modified to 3g daily for 7 days considering the evolutive nature of the lesion.

The patient was recalled for a subsequent appointment 9 days later in order to establish a treatment plan. In spite of the antibiotic therapy, no clinical improvement was noted. Crestal granulation was remarked. The bucco-mental paresthesia continued to be a cause for complaint, producing a certain discomfort.

Faced with this clinical situation, the treatment of choice was excision of the lesion and extraction of the teeth 33 and 35, seated in the lesion (**Fig. 6, 7 and 8**). General anaesthesia was chosen considering

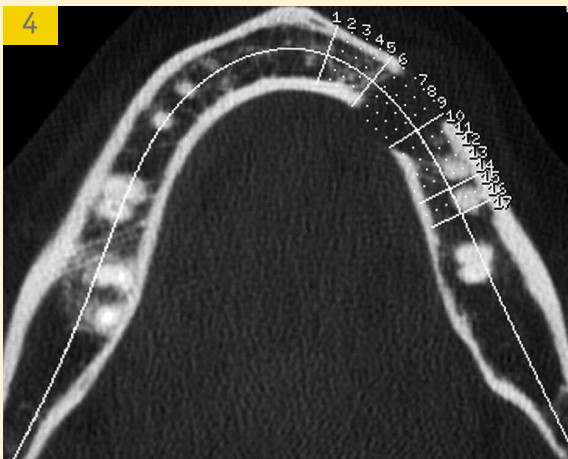


Fig. 4 : Image scanner de la lésion / *CT Scan.*

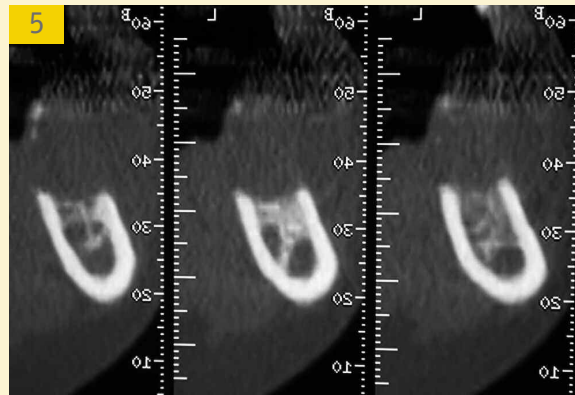


Fig. 5 : Image scanner de la lésion / *CT Scan.*



Fig. 6 : Elimination de la lésion.
Excision of the lesion.

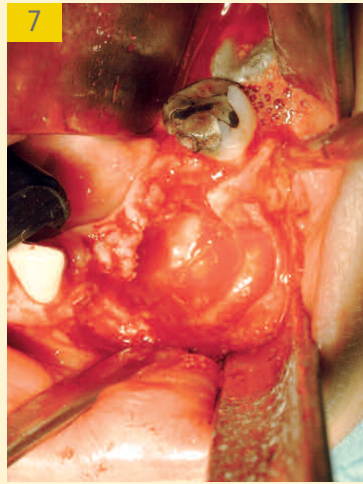


Fig. 7 : Extraction de 33 et 35.
Extraction of the teeth 33 and 35



Fig. 8 : Sutures / *Sutures.*

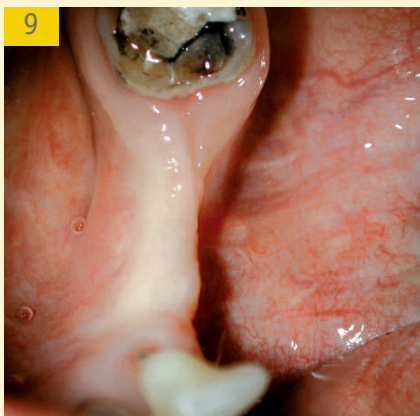


Fig. 9 : Cicatrisation à 24 mois
Healing at 24 months.



Fig. 10 : Cicatrisation à 24 mois
Healing at 24 months.





nesthésie générale est motivée par le contexte psychologique de la patiente. Le compte-rendu anatomopathologique conclue à un améloblastome unikystique plexiforme. Le bilan d'extension réalisé confirme la localisation unique mandibulaire de cette tumeur. Les images cliniques et radiographiques de contrôle réalisées 24 mois plus tard montrent une belle cicatrisation osseuse et muqueuse (Fig. 9 et 10).

Discussion

L'améloblastome est une tumeur odontogène bénigne d'agressivité locale, développée à partir des débris épithéliaux de Malassez après régression de l'organe de l'émail, des résidus épithéliaux du parodonte, et de la paroi épithéliale des kystes odontogéniques (Gardner et Corio, 1984). D'après Martin-Duverneuil et Auriol (2004) la forme intra-osseuse est la plus habituelle, les formes extra-osseuses (gingivales) étant exceptionnelles et habituellement sans traduction radiographique, en dehors d'une éventuelle érosion osseuse superficielle. Ces auteurs précisent que l'améloblastome représente 50 % des tumeurs odontogéniques, et 10 % de l'ensemble des lésions kystiques odontogènes, avec une nette prédominance mandibulaire (93 %) (Eversole et coll., 1984). Dans cet article seule la forme intra-osseuse sera abordée.

Le concept d'améloblastome unikystique a été pour la première fois proposé en 1977 par Robinson et Martinez. Il représente 5 à 22 % de tous les améloblastomes, d'après Reichart (1995) et jusqu'à 20 % des améloblastomes, pour Martin-Duverneuil et Auriol (2004) Le terme améloblastome unikystique plexiforme fait référence suivant Gardner et Corio (1984) à un modèle de prolifération épithéliale en forme de plexus. Les critères histologiques sont ceux d'un kyste unique limité par un épithélium de type améloblastique, présentant des cellules cylindriques hautes à polarité nucléaire inversée dans l'assise basale, et une fine couche de cellules étoilées en surface (Philipsen et coll., 1992). Le plexus est formé par des cellules épithéliales améloblastiques anastomosées en cordons linéaires. D'après une revue de 3677 cas sur plus de 33 ans réalisée par Reichart et coll. (1995), un tiers des améloblastomes unikystiques est plexiforme, un tiers folliculaire et un tiers de type histologique différent. Les améloblastomes unikystiques plexiformes se caractérisent par leur période d'apparition, leur évolution, leur localisation, leur taux de récurrence et leur image radiologique. Lors de la 3^{ème} ou 4^{ème} décennie et lorsqu'ils ne sont

the patient's psychology. The pathology findings confirmed the presence of a plexiform unicystic ameloblastoma. Healing at 24 months is good (Fig. 9 and 10). Follow-up tests for spread of the tumor confirmed its localised, unique presentation.

Discussion

Ameloblastoma is a benign, locally malignant dental tumor, which develops from epithelial debris of the Malassez layer subsequent to disparition of the enamel organ, from epithelial residue of the periodontal ligament or the epithelial remnants of odontogenic cysts (Gardner and Corio, 1984). According to Martin-Duverneuil and Auriol (2004), the intra-osseous form is most commonly encountered, the extra-osseous (gingival) forms being exceptional (usually with no radiological image, apart from the possibility of superficial osseous erosion). They add that the ameloblastoma represents 50 % of odontogenic tumors and 10 % of the overall odontogenic cysts with a preference for mandibular sites (93 %) (Eversole et al., 1984). In this article only the intra-osseous form will be discussed.

The concept of a unicystic ameloblastoma was first proposed in 1977 by Robinson and Martinez. It represents between 5 and 22 % of all ameloblastomas according to Reichart (1995) and up to 20 % of ameloblastomas according to Martin-Duverneuil and Auriol (2004). The term plexiform unicystic ameloblastoma refers to a type, which develops from an epithelial origin in the shape of a plexus, according to Gardner and Corio (1984). The histological criteria are those of a unilocular cyst, limited by an epithelium of ameloblastic type, with palisading columnar cells showing polarised nuclei embedded in the epithelial basal layer with a thin covering of stellate reticulum (Philipsen et al., 1992). The plexus is formed by epithelial ameloblastic anastomoses in straight lines. After a study of 3677 cases over more than 33 years carried out by Reichart et al. (1995) one third of the unicystic ameloblastomas are plexiform, second third follicular and the rest of other histological types.

Plexiform unicystic ameloblastomas are characterized by their period of appearance, evolution, localization, rate of recurrence and radiological image. They were reported during the 3rd or 4th decade of life





pas associés à une dent incluse (Eversole 1984). Pour Rosenstein (2001), la moyenne d'âge est de 35 ans. Martin-Duverneuil et coll. (2004) notent au contraire, que les améloblastomes unikystiques se différencient des formes classiques par un âge de survenue plus jeune, dans la 2^{ème} et 3^{ème} décennie (Rosenstein et coll., 2001). Et de manière générale, les moyennes obtenues sur l'âge d'apparition des améloblastomes unikystiques ne dépassent pas la 4^{ème} décennie. Dans le cas clinique présenté, la patiente a 50 ans, et cet améloblastome s'est donc déclaré de façon tardive en comparaison avec toutes les données statistiques actuelles obtenues.

Leur évolution se montre particulièrement expansive et envahissante en l'absence de traitement.

Leur localisation est préférentiellement en secteur postérieur mandibulaire (80 à 90 % suivant la littérature).

Leur taux de récurrence est important d'après Philipsen et coll., (2001). Cependant le taux de récurrences pour un améloblastome unikystique plexiforme est inférieur à celui d'un améloblastome unikystique folliculaire. Nakamura (2002) confirme cette donnée après traitement conservateur et chirurgical confondus, avec 26,7 % de récurrence pour le type folliculaire et 21,7 % pour le type plexiforme. Cependant, il précise que ce taux est largement supérieur à la moyenne des améloblastomes unikystiques tous types histologiques confondus, pour lesquels le pourcentage de récurrence est de 8,3 %.

Martin-Duverneuil et Auriol (2004) considèrent aussi que le taux de récurrence pour les améloblastomes unikystiques quel que soit le sous type histologique est, après énucléation, compris entre 10 et 25 %. Rosenstein et coll. (2001) considère pour sa part que l'améloblastome unikystique est une tumeur d'évolution lente avec un caractère agressif dans le cas d'une forme histologique plexiforme. Leur image radiologique est le plus souvent uniloculaire. Le rapport uniloculaire/multiloculaire est de 8/7 suivant Philipsen et Reichart (1998). Martin-Duverneuil et Auriol (2001) décrivent l'améloblastome unikystique typique comme une image radiologique volumineuse le plus souvent, bien limitée, multigéodique, formée par la coalescence de multiples lésions soufflantes de tailles variables, classiquement en bulles de savons. Les corticales sont souvent refoulées, diminuées ou inexistantes. Martin-Duverneuil note aussi la présence, pour un cas sur deux de rhizalyses, et des déplacements dentaires pour 3 cas sur 4. Les calcifications sont toujours absentes. Le type histologique plexiforme n'a pas de traduction radiologique visible.

and not associating to an impacted tooth (Eversole 1984). For Rosenstein et al. (2001), the average age is of 35 years old. Martin-Duverneuil and Auriol. (2004) note, on the contrary, that unicystic ameloblastomas differ from classic forms by a younger age of occurrence, in the 2nd and 3rd decade of life (Rosenstein et al., 2001). Generally, the average age of occurrence of unicystic ameloblastomas is not beyond the 4th decade of life. In the presented clinical case, the patient is 50 years old, and this ameloblastoma thus occurred later when compared to all the current statistical data.

Their evolution is shown to be particularly expansive and invading nature in the absence of treatment.

Their localization is preferentially in the posterior mandibular sector (80 to 90 % according to the literature).

Their recurrence rate is significant according to Philipsen et al., (2001). However the recurrence rates for a plexiform type is lower than that of a follicular unicystic ameloblastoma. Nakamura et al. (2002) confirms this statement from their observation from combined conservative and surgical treatment, with 26.7 % of recurrence for the follicular type and 21.7 % for the plexiform type. However, they showed that this rate is much superior to the average value (8.3 %) of unicystic ameloblastomas of combined histological types.

Martin-Duverneuil and Auriol (2004) also consider that the rate of recurrence for unicystic Ameloblastomas of whatever histological type remains quite low following enucleation, between 10 and 25 %. Rosenstein et al. (2001) consider that unicystic ameloblastomas are tumors of slow evolution, with an aggressive character in the histological plexiform type. The radiological image is most commonly unilocular. The proportion of unilocular/multilocular is about 8/7 after Philipsen and Reichart (1998). Martin-Duverneuil and Auriol (2001) describe a unicystic type of Ameloblastoma as typically having a voluminous radiological image, most commonly circumscribed, and formed by the coalescence of multiple expansile lesions of varying size, classically multilocular «soap bubble» appearance. Quite often the cortical plates are expanded, diminished or absent. Martin-Duverneuil and Auriol also note that in one out of two cases, root resorption is an associated feature and in 3 out of 4 there is migration of the adjacent teeth. Calcifications are always absent. The histological plexiform type has no visible radiological expression.





Gardner et coll. (1984) et Nakamura et coll. (1995) différencient les améloblastomes unikystiques des multikystiques par le fait que généralement, les premiers sont bien localisés et maintenus dans un espace délimité par une capsule fibreuse tandis que les seconds sont souvent caractérisés par un envahissement agressif des tissus adjacents.

Le cas clinique étudié montre une image ostéolytique uniloculaire avec l'effacement des tables osseuses vestibulaires et linguales sur les deux tiers de leur hauteur. Cet aspect s'apparente à la représentation radiographique classique d'un améloblastome. La localisation antérieure mandibulaire n'étant cependant pas en faveur d'un diagnostic positif d'améloblastome.

Il est donc légitime de rappeler ici l'importance du diagnostic différentiel. Ce dernier se fait essentiellement avec les autres kystes dérivés de l'appareil odontogénique. Martin-Duverneuil et Auriol (2004) rappellent que des associations lésionnelles sont fréquentes en particulier avec les kystes odontogéniques, modifiant l'aspect radiologique, et pouvant aussi fausser le résultat anatomo-pathologique si le prélèvement ne concerne pas la totalité de la lésion.

Certains kystes ont été écartés de ces associations possibles :

- le kyste folliculaire qui ne concerne que les dents immatures,
- le kyste épithélial odontogène calcifié, aucune calcification n'ayant jamais été observée dans un améloblastome,
- l'adéno-améloblastome qui présente une nette prédominance au maxillaire dans la région incisivo-canine et qui simule de façon typique un kyste dentigère,
- le myxome odontogénique qui est une tumeur bénigne de petite taille. Il s'apparente à l'améloblastome lorsqu'il augmente de volume prenant alors un aspect multigéodique en nid d'abeille. La lésion a un aspect polygonal par confluence de lésions soufflantes.

Il est important de préciser la nécessité d'une étude anatomo-pathologique qui reste le seul examen à pouvoir objectiver et confirmer dans la plupart des cas et avec certitude, le diagnostic.

Sur le plan thérapeutique, le principe d'une chirurgie d'exérèse large était décrit comme technique de référence, avec la résection importante de la zone concernée par l'améloblastome. La raison principale de ce choix étant le taux de récurrence très élevé, précisé lors de notre étude.

Gardner et al (1984) and Nakamura et al (1995) differentiate unicystic from multicystic ameloblastomas by the fact that generally, the prior are well localized and maintained in a space delineated by a fibrous capsule whereas the latter are often characterized by an aggressive invasion of neighboring tissues.

The studied clinical case shows a unilocular osteolytic image with a disappearance of buccal and lingual cortical plates on two thirds of their height. This aspect is similar to the classic radiographic presentation of an ameloblastoma. The anterior localization in the mandible is however not in favor of a positive diagnosis of ameloblastoma.

It is thus essential to establish the differential diagnosis with the other cysts derived from the dental organ. According to Martin-Duverneuil and Auriol (2004), associated lesions are frequent in particular with odontogenic cysts which can modify the radiological aspect, and thus falsify the anatomopathological result if the biopsy does not include the totality of the lesion.

Certain cysts have been eliminated :

- follicular cysts which involve immature teeth,
- Calcified epithelial dental cyst since calcification never having been noted in an ameloblastoma,
- adeno-ameloblastoma which presents a predominance for the maxilla in the canine-incisor region, typically simulating a dentigerous cyst,
- dental myxoma: a small benign tumor which is similar to ameloblastoma but increases in size with a multigéodesic, honeycomb shape. The lesion has a polyhedral shape due to the fusion of the expanding lesions.

It should be stressed that the anatomopathological examination is the only objective method of diagnosis.

As for treatment, radical surgical dissection has been the reference, in other words a significant resection of the zone concerned by ameloblastoma due to the high recurrence rate.





Actuellement, les différents travaux tendent à harmoniser le traitement de l'améloblastome en fonction de ses caractéristiques anatomo-pathologiques et cliniques (Shatkin et Hoffmeister, 1996 ; Müller et Slootweg, 1985).

Nous savons aujourd'hui que l'améloblastome est localement invasif mais d'évolution lente, et très rarement accompagné de métastases bénignes.

Une chirurgie large peut entraîner de sérieuses complications, telles que des déformations faciales, des dysfonctions de l'appareil manducateur, des paresthésies ou anesthésies transitoires ou totales, tout à fait injustifiées pour le risque de récurrence existant. Certains auteurs n'hésitent pas à faire une reconstruction osseuse immédiate. Aujourd'hui la seule notion de récurrence n'est plus l'unique critère d'orientation thérapeutique, le taux de morbidité post opératoire ainsi que la qualité de vie du patient étant également retenus. Par conséquent toute alternative à la résection large doit être envisagée. A la lumière des dernières études parues, certaines grandes lignes quant au choix thérapeutique se dessinent.

Gardner et Corio (1984) puis Robinson et Martinez (1997) ont montré que les récurrences, après traitement conservateur, étaient moins nombreuses pour les améloblastomes unikystiques que pour les multikystiques. De nombreuses études sur l'Améloblastome unikystique sont référencées. Les travaux de Nakamura et coll. (2002) portant sur 78 cas, avec un suivi à long terme (dont 27 améloblastomes unikystiques) montrent un taux de récurrence de 7,1 % après chirurgie radicale et de 33 % après traitement conservateur tous types d'améloblastomes confondus. Le résultat de cette étude est plutôt encourageant sur le long terme pour une prise en charge plus conservatrice de l'améloblastome. Muller et Slottweg (1985) quant à eux, décrivent dans une étude portant sur 84 améloblastomes, des taux de récurrence de 54 % en cas de traitement conservateur et de 25 % pour une approche chirurgicale radicale. La technique chirurgicale radicale utilisée consiste en un curetage de l'améloblastome et la réalisation d'une marge de sécurité d'au moins 1 cm d'épaisseur.

Le traitement conservateur réalise une marsupialisation et/ou une énucléation et curetage de la zone contrôlée par un colorant de gentiane violette à 2,5 %. La marsupialisation consiste à réaliser une suture des bords de la cavité kystique persistante à la suppression de son contenu, aux berges de l'ouverture muqueuse initiale. Le résultat sert à obtenir une poche comparable à celle des

Currently, several different studies tend towards treatment of the Ameloblastoma in function to its anatomo-pathological properties and clinical appearance (Shatkin and Hoffmeister, 1996 ; Müller and Slootweg, 1985).

We know today that ameloblastome is locally invasive but of slow evolution, and rarely associated with benign metastases

A radical and invasive surgery can lead to serious complications such as facial deformations, dysfunction of the masticatory system, paresthesia or temporary or permanent anaesthesia inspite of the existing recurrence risk and moreover certain authors do not hesitate to make an immediate bone reconstruction (Montoro et al., 2008). Today, the sole risk of recurrence is no longer the only criterion for treatment orientation, the rate of post-operative morbidity and the the patient's quality of life are also taken into consideration. Consequently any alternative to extensive resection must be explored. In the light of the latest published references, certain choices of treatment are becoming more clearly defined.

Gardner and Corio (1984) and also Robinson and Martinez (1997) have shown that recurrence after conservative treatment has been less frequent for unicystic ameloblastomas than multicystic types. Nakamura et al., in a long term study concerning 78 cases (of which 27 were unicystic ameloblastomas) showed a rate of 7.1 % recurrence after radical surgery and 33 % after conservative treatment, all types of ameloblastomas considered. The results of this study are encouraging in the long term for a conservative treatment of ameloblastomas. Previous studies have shown more dichotomous results, for example the study by Muller and Slottweg (1985). In this study, which concerned 84 ameloblastomas, they found a recurrence rate of 54 % after conservative treatment and 25 % after radical surgery. The radical surgical technique consisted of curettage of the ameloblastoma and the provision of a safety zone of at least 1cm width around the area.

The conservative treatment consisted of marsupialisation and/or enucleation and curettage of the zone under visual control using 2.5 % gentian violet. The marsupialisation consists in performing a suture of the cystic cavity edges, following a removal of its contents, to the borders of the initial mucosal opening. The result serves for obtaining a pocket comparable to





marsupiaux. C'est en d'autre terme la conversion du kyste en une poche. Il est à noter que dans l'étude de Nakamura et coll. (2002) la marsupialisation est réalisée en créant une fenêtre la plus large possible donnant sur l'améloblastome avec réalisation concomitante d'un obturateur en résine porté par le patient, sur des durées variant de 3 mois à 2 ans en moyenne.

Sur 30 patients ayant bénéficié de ce traitement, on a pu observer une disparition totale de la lésion dans 4 cas, une diminution de plus de la moitié du volume dans 19 cas et une absence d'évolution voire une augmentation de volume dans 8 cas. La réponse à la marsupialisation est meilleure pour les cas unikystiques. Cependant Nakamura et coll. (2002) à la lumière d'une étude antérieure note que la marsupialisation s'accompagne d'un taux de récurrence élevé de 37,5 %. Par conséquent, il édicte quelques règles à respecter pour utiliser cette technique et en faire, selon lui, la technique de première intention pour tout améloblastome large, nécessitant une chirurgie délabrante. Si la tumeur ne diminue pas dans le mois suivant le début de la marsupialisation, il est nécessaire de réaliser immédiatement une énucléation et un curetage suffisant des tissus périphériques. De plus, si à la fin de la marsupialisation, la régression de la lésion est incomplète, il est nécessaire de réaliser un curetage complémentaire systématique. Cette technique n'est cependant pas considérée comme une technique de référence par tous les auteurs, et représente même pour certains un traitement anecdotique.

Les autres caractéristiques prises en compte dans l'évaluation du potentiel invasif de l'améloblastome unikystique sont, l'aspect de l'image radiographique, la classification histologique de l'OMS ainsi que les cellules périphériques de la lésion. Un améloblastome sera d'autant moins invasif et récidivant, si l'image radiologique est uniloculaire, les cellules périphériques cuboïdales et le typage histologique unikystique simple.

A l'inverse, il sera d'autant plus invasif, si l'image radiologique est un aspect typique de bulles de savons, les cellules périphériques basales et le typage histologique folliculaire. De moyenne invasivité on note une image radiologique multiloculaire et un type histologique plexiforme.

Les résultats de l'étude menée par Gardner et Corio (1984) montre que le taux de récurrence pour les tumeurs unikystiques est sensiblement le même, que l'approche soit chirurgicale, radicale ou conservatrice. En revanche, pour le type histologique plexiforme, le taux de récurrence est plus important avec un traitement conser-

that of the initial volume. It is of the other term the conversion of the cyst into a pocket. It is noted that in the study of Nakamura et al. (2002) marsupialisation was achieved by creating a window as large as possible directly onto the Ameloblastoma and the insertion of a resin obturator, worn by the patient for periods varying from 3 months to 2 years on average.

Of the 30 patients receiving this treatment, total disappearance of the lesion was confirmed for 4, and in 19 others, a reduction by half in the volume of the lesion. In 8 more of these patients, there was no change or a slight increase in the volume of the lesion. The response to marsupialisation is better in unicystic cases. However, Nakamura et al. (2002) noted that following marsupialisation, the recurrence rate is high : 37.5 %. Consequently they described guidelines to respect in using this technique, and recommended their application in all large ameloblastomas requiring radical surgery. When the tumor does not diminish within the first month following marsupialisation, enucleation and sufficient curettage of the surrounding tissues should follow immediately. However following marsupialisation, if regression of the lesion is not complete, it is necessary to systematically perform supplementary curettage. This is not, however, a treatment that is widely accepted as a reference and for some authors remains anecdotal.

Other characteristics taken into account in an evaluation of the invasive potential of unicystic ameloblastoma are radiographic image, WHO histological classification as well as peripheral cells of the lesion. An ameloblastoma will be non-invasive if it's radiological image is unilocular, the peripheral cells cuboid and the histological type of unicystic.

On the contrary, it will be invasive if it's radiological image is of « soap-bubble » type, the peripheral cells of basal nature and the histological follicular type. A moderately invasive type has a multilocular radiological image and a histological plexiform type.

The results of the study (Gardner and Corio, 1984) show that the rate of recurrence of unicystic tumors is much the same, regardless of the type of intervention, radical surgical or more conservative. However, the histological plexiform type has a higher rate of recurrence when conservative treatment is preferred to radical surgery.





vateur, plutôt que radical. Gardner et Corio (1984) considèrent qu'un améloblastome unikystique plexiforme, avec une prolifération épithéliale limitée à la lumière du kyste, peut simplement bénéficier d'une seule énucléation et d'un simple suivi clinique. En revanche si la prolifération atteint la paroi fibreuse du kyste, ils préconisent une chirurgie plus large.

Le cas clinique présenté décrit un améloblastome unikystique, bordé de cellules cuboïdes, et représenté par une image radiologique uniloculaire bien délimitée. Tous ces éléments concourent à le classer comme non invasif. Cependant cette conclusion doit être modulée par le fait que son type histologique est plexiforme. On parle donc d'améloblastome d'invasivité moyenne. L'option thérapeutique prise a privilégié un geste chirurgical non invasif, se limitant à une énucléation de la lésion, un curetage soigneux de la cavité résiduelle, ainsi que l'avulsion des dents contiguës à la lésion, de manière à s'assurer d'une exérèse la plus complète possible. Une surveillance stricte et régulière, du fait du risque de récurrence important, a été instaurée depuis le geste. A ce jour, soit 4 ans après sa prise en charge, les contrôles radiographiques annuels n'ont pas montré de signe de récurrence, mais une cicatrisation osseuse satisfaisante. Nous noterons cependant qu'il n'existe pas encore de consensus quant à la prise en charge thérapeutique d'un améloblastome, et que par conséquent, l'attitude thérapeutique sera adaptée au cas par cas.

Le champ thérapeutique est ouvert à la découverte de nouvelles thérapeutiques ou à l'ajustement de celles déjà existantes. C'est ainsi que, par exemple, Curi et coll. (1997) et Pogrel (1993) suggèrent l'utilisation de la cryothérapie au liquide nitrogène comme moyen physique complémentaire de la chirurgie.

Gardner and Corio (1984) consider that in the case of a unicystic plexiform ameloblastoma with epithelial proliferation limited to the area of the cyst, enucleation and clinical follow-up only is required. Nevertheless, if the proliferation has reached the fibrous contour of the cyst, they recommend more invasive surgery.

In our clinical case the ameloblastoma is unicystic, surrounded by cuboid cells and has a unilocular, well-circumscribed radiological image. All the information concurs to classify it as non-invasive. However this conclusion should be moderated by the fact that its histological type is plexiform. It should be classified as moderately invasive. The therapeutic choice was oriented towards a non-invasive surgical option (enucleation of the lesion, curettage of the adjacent bony wall and extraction of teeth adjacent to the lesion in order to assure a complete lesion removal). A strict and regular follow-up was established due to the high risk of recurrence. To date, 4 years after the intervention, the annual radiographic control did not show any sign of recurrence but a satisfactory osseous healing. We would nonetheless remark that there is no current consensus regarding the treatment of an Ameloblastoma and in consequence the response should be adapted to each case.

The therapeutic field is opened to the discovery of new ways of treatment or an adaptation of those already existing. For example Curi et al. (1997) and Pogrel (1993) suggest the use of cryotherapy with nitrogen liquid in complement to surgery.



Conclusion

L'améloblastome unikystique est une tumeur peu fréquente. Les différentes études précitées diffèrent quand à leurs conclusions sur l'améloblastome, et plus spécifiquement, pour la forme unikystique plexiforme. Il n'existe pas encore de consensus sur la procédure thérapeutique à suivre, en sachant que la chirurgie d'exérèse complète est plutôt dominante. Par conséquent, le sens clinique et un suivi régulier seront les points forts d'une thérapeutique réussie.

Unicystic ameloblastoma is a rare tumor. Various studies on the subject differ in their conclusions and more specifically for the plexiform type. There is still no consensus on the treatment procedure to be followed, by knowing that the complete removal by surgery is rather dominant. Consequently, clinical experience and a regular follow-up will be the key points for a successful treatment.

Demande de tirés-à-part :

Victorin AHOSSI - Centre Hospitalier et Universitaire de Dijon - 3, rue du Fbg. Raines - 21000 Dijon - FRANCE.

bibliographie

- CURI M.M., DIB L.L., PINTO DS.
Management of solid ameloblastoma of the jaws with liquid nitrogen spray cryosurgery.
Oral Surg Oral Med Oral Path Rad End 1997;**84**:339-344.
- EVERSOLE L.R., LEIDER A.S., STRUB D.
Radiographic characteristics of cystogenic ameloblastoma.
Oral Surg Oral Med Oral Path 1984;**57**:572.
- GARDNER D.G., CORIO L.R.
Plexiform unicystic ameloblastoma. A variant of ameloblastoma with a low-recurrence rate after enucleation.
Cancer 1984;**53**:1730-1735.
- GARDNER D.G., CORIO R.L.
The relationship of plexiform unicystic ameloblastoma to conventional ameloblastoma.
Oral Surg Oral Med Oral Path 1983;**56**:54-60.
- MARTIN-DUVERNEUIL N., AURIOL M.
Les tumeurs maxillo-faciales. Imagerie, anatomopathologie.
Montpellier, *Sauramps méd* 2004;402.
- MULLER H., SLOOTWEG P.J.
The ameloblastoma, the controversial approach to therapy.
J Maxillofacial Surg 1985;**13**:79-84.
- NAKAMURA N., HIGUSHI Y, MITSUYASUT, OHISHI M.
Comparison of long-term results between different approaches to ameloblastoma.
Oral Surg Oral Med Oral Pathol Radiol Endod. 2002 ;
93:13-20.
- NAKAMURA N., HIGUSHI Y., TASHIRO H., OHISHI M.
Marsupialization of cystic ameloblastoma: a clinical and histopathological study of the growth characteristics before and after marsupialization.
J Oral Maxillofac Surg 1995;**53**:748-756.
- PHILIPSEN H.P., ORMINSTON I.W., REICHART PA.
The desmo- and osteoplastic ameloblastoma .Histologic variant or clinicopathologic entity ?
Inter J Oral and Maxillofac Surg 1992;**21**:352-357.
- PHILIPSEN H.P., REICHART P.A.
Unicystic ameloblastoma.A review of 193 cases from the literature. *Oral oncology* 1998;**34**:317-325.
- PHILIPSEN H.P., REICHART P.A., NIKAI H., TAKATA T., KUDO Y.
Peripheral ameloblastoma: biological profile based on 160 cases from the literature.
Oral Oncol 2001;17-27.
- POGREL M.A.
The use of liquid nitrogen cryotherapy in the management of locally aggressive bone lesions.
J Oral Maxillofac Surg 1993;**51**:269-274.
- REICHART P.A., PHILIPSEN H.P., SONNER S.
Ameloblastoma : biological profile of 3677 cases.
Oral oncol Europ J cancer, 1995;**31B**:.86-89.
- ROBINSON L., MARTINEZ M.G.
Unicystic ameloblastoma : a prognostically distinct identity.
Cancer 1997;**40**:2278-2285.
- ROSENSTEIN T., POGREL M.A., SMITH R.A., REGEZI J.A.
Cystic ameloblastoma - behavior and treatment of 21 cases.
J Oral Maxillofac Surg 2001;**59**:1311-1318.
- SHATKIN S., HOFFMEISTER F.S.
Ameloblastoma : a rational approach to therapy.
Oral surg 1996;**24**:331.