

原文題目(出處):	A mandibular swelling of long duration (Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol 2017;124:214-219)
原文作者姓名:	Sujata Mohanty, Jitender Dabas, Sunita Gupta, Aadithya B. Urs, Sanchaita Kohli, and Sandeep Yadav,
通訊作者學校:	Maulana Azad Institute of Dental Sciences, New Delhi, India. (MDS)
報告者姓名(組別):	王煜翔(internC)
報告日期:	106.10.3

內文:

### CASE PRESENTATION

-病人:

45 歲，女性，2 個月前開始右側下顎悶痛、痠痛(dull, aching pain)，病灶已經持續緩慢(slowly, progressively)的腫大 30 年，沒尋求過任何治療，病人與其家族沒有類似疾病歷史，病灶部位沒有牙痛、流膿、受傷的歷史

-口外檢查:

外觀明顯不對稱、一個 diffuse, smooth, bony hard, tender 的腫大在下右顎，範圍從下顎中線到耳顳前緣，下方延伸至 submandibular region。皮膚外觀質地溫度正常，沒有麻木感。



-口內檢查:

口腔衛生不好，右下第一小白齒後缺牙，並且有明顯的 bony hard swelling 侵犯到齒槽骨，範圍從右下第一小白齒延伸到 retromolar region，頰側至前庭，舌側也可摸到腫大，但不影響舌頭活動。ridge crest 上有對側牙齒的壓痕。

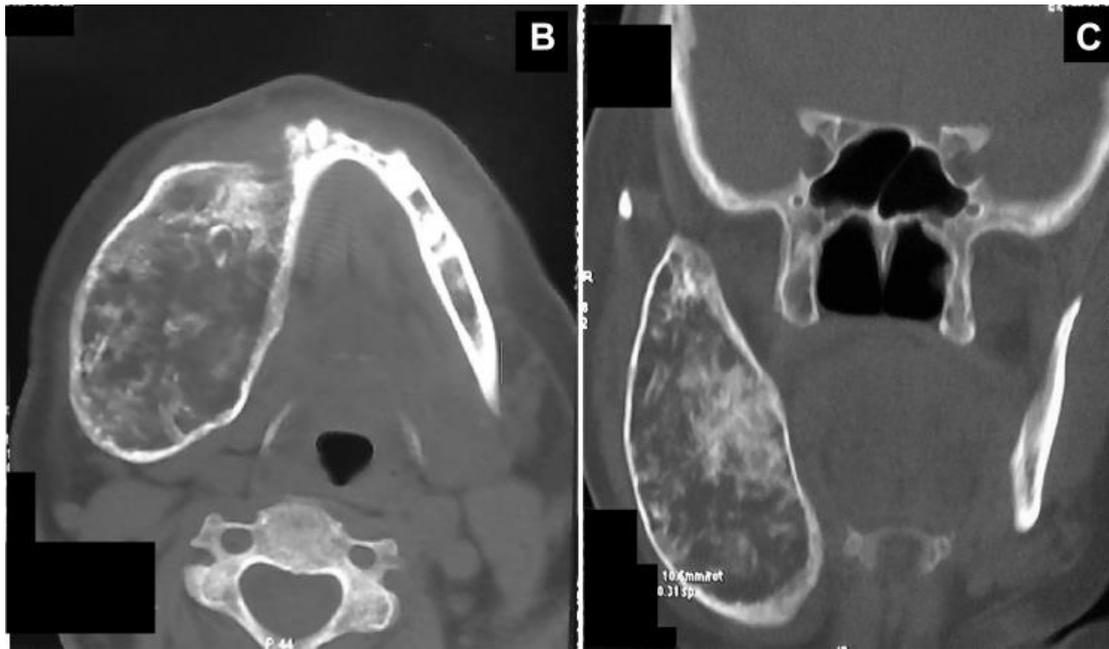


-X 光檢查:

Pano 影像觀察，在下顎右側有一個 ill-defined, mixed radiolucent/radiopaque lesion，範圍從 symphyseal region 到 the right coronoid process，且 right subcondylar region 向後向下延伸，沒有破壞 cortical margins



CT 影像則顯示為一個 expansile, well-defined radiolucency 並且有 intervening ground-glass opacities and sclerotic areas with endosteal scalloping。影像中沒有發現 periosteal reaction。病灶似乎有使 oral cavity 向左側位移，但沒有明顯侵犯鄰近的組織。在雙側 deep cervical regions 有看到約半公分的 lymph nodes。



## DIFFERENTIAL DIAGNOSIS

### -Fibro-osseous lesions:

一個不痛且同時混合 radiolucent/radiopaque 的下顎病灶，並造成 cortical expansion，這些條件讓我們想到 Fibro-osseous lesions。同時有 hypercellular fibrous elements 和 osseous elements，為一個緩慢生長的病灶，健康的 bone 逐漸被不成熟且雜亂的 fibrous bony tissues 取代。容易造成臉部不對稱，X 光顯示為 ground-glass 到 sclerotic，margin 通常不明顯，這些特徵都與這次病灶相符。

### - Cemento-ossifying fibroma (COF):

緩慢生長，發生在下顎的 fibro-osseous neoplasm，無痛腫大常為橢圓形，會造成鄰近牙齒的牙根位移或吸收，但是邊緣通常是 well defined。在成熟過程會由 radiolucent 轉換成 mix，最後變成以 radiopaque 為主。這次病灶在 pano 的邊緣為 ill-defined，但是 CT 卻是 well-defined

### - Chronic nonsuppurative osteomyelitis:

通常為長期，low-grade，常跟 odontogenic 或 post-traumatic infection 相關，初期臨床症狀為 deep pain、發燒、無力、厭食。常伴隨 indurated swelling 與淋巴結腫大，或是掉牙、牙關緊閉等，但通常會好幾年沒有臨床症狀。放射影像與 fibro-osseous lesion 類似，ill-defined、mixed radiolucent/radiopaque、bony expansion、cortical thickening。

質地硬的長時間腫脹、會痛、並合併淋巴結腫大都與這次病灶相符，所以雖然在 CT 上沒看到 periosteal reaction，仍將它放入 DD

**-Desmoplastic ameloblastoma:**

benign odontogenic neoplasms，是一種不常見的 ameloblastoma 變異，有復發可能，為無痛腫脹，常往 buccal 擴大，可能造成牙根移位。放射影像與 ameloblastoma 不同，為 mixed radiolucent/radiopaque，並且是 ill-defined，不易與 Fibro-osseous lesions 區別。

**- Calcifying epithelial odontogenic tumor (CEOT/ Pindborg tumor):**

benign odontogenic neoplasms，無痛腫脹，生長緩慢，好發於下顎後側。放射影像依據病灶發展程度而異，不規則的 radiolucent，poorly or clearly defined，在 radiolucent 中有數個大小不同的 radiopaque。

**DIAGNOSIS****-incisional biopsy:**

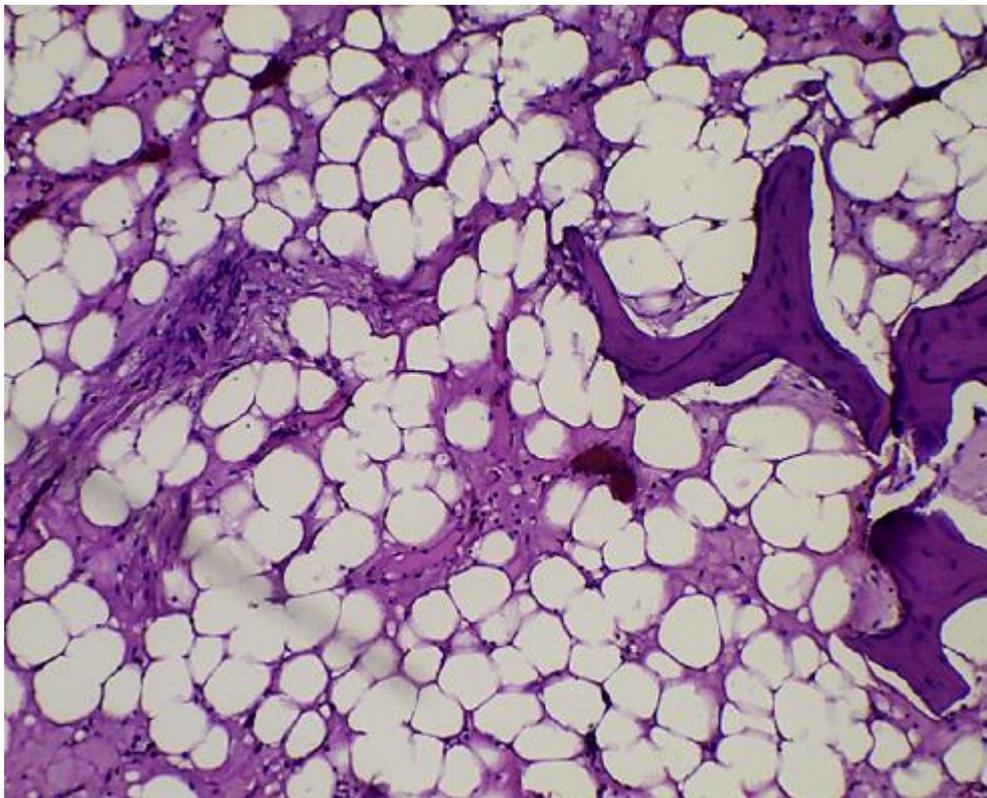
切下大小為 2.3\*1.1\*0.7 cm，檢察為 resorbing trabeculae of bone、lacunae 中有 osteocytes，有明顯的 resting and reversal lines，Supporting stromal tissue 中充滿了成熟的 adipocytes，其 cytoplasm empty 並且細胞核呈 signet-ring appearance。另外有些地方充滿了 vascularity 並且有觀察到 hemorrhage。

根據以上發現，診斷為 mandibular intraosseous lipoma (IOL)

**MANAGEMENT**

查了許多文獻沒有找到像這個病人這麼大的 mandibular IOL，雖然一般建議做 conservative surgical excision，但考量到病灶的大小以及復發的可能，最後決定做 right hemimandibulectomy，大小為 10\*5\*3 cm。

檢查後發現骨髓中充滿了 fatty tissue，顯微鏡下觀察為 mature adipocytes 中參雜了殘存的 osseous trabeculae。另外，cortical plate 保留完整，沒有發現被 adipocytes 侵犯，並在 6 個月追蹤時沒有復發跡象。



## DISCUSSION

IOL，起源於骨髓中的 adipose tissue，但在所有骨頭相關的 tumor 中佔不到 0.1%，算是最少見的 benign primary osseous neoplasms。IOL 通常出現在 long bone 中的 metaphysis，或是在 calcaneus。發生在 jaw 的案例很少，從 1948 年以來只有 17 個案例有被文獻紀錄。

IOL 好發於 40~60 歲，沒有或稍微好發於女性，但作者認為由於案例太少不夠統整出傾向。IOL 通常不會痛也不會腫大，常常是拍 X 光意外發現。這次病患 30 年來的忽視以及口腔衛生差，造成有記載中最大的 IOL。

有各種不同的研究探討 IOL，大多數學者認為 IOL 是 true benign neoplasms，也有人認為是 infarcts, trauma 或是 inflammation 間接造成，這些支持者認為從 inferior alveolar artery 分支出的 nutrient vessels 在骨頭中堵塞造成 marrow 中的 adipocytes 聚集並產生 lipomatous mass，形成這次的 lesion。

## CONCLUSIONS

IOL 為良性的 medullary adipose 組織增生，很少發生在下顎，雖然通常為緩慢生長且沒有症狀，但如果長時間不治療，還是可能出現明顯腫大、造成牙齒問題、臉部變形或功能缺失。所以如果發生像這次案例，IOL 也要列為 DD。IOL 如果早期發現可以進行 conservative surgical excision，但如果病灶太大建議 more radically。

題號	題目
1	Cemento-ossifying fibroma (COF)X 光影像中，發生順序為? (A) Radiolucent→radiopaque→mixed (B) Radiolucent→mixed→radiopaque (C) mixed→radiopaque→Radiolucent (D) radiopaque→mixed→Radiolucent
答案 (B)	出處：Oral Radiology - Principles and Interpretation, 7th edition, 2014, Chapter.19
題號	題目
2	關於 Calcifying epithelial odontogenic tumor (CEOT)的敘述，以下何者為非? (A) 又稱為 Pindborg tumor (B) 通常為無痛腫大 (C) 為惡性腫瘤 (D) 生長緩慢
答案 (C)	出處：Oral Radiology - Principles and Interpretation, 7th edition, 2014, Chapter.22