

下顎幼年性骨化纖維瘤合併動脈瘤性骨囊腫— 病例報告

吳伯璋* 陳玉昆** 黃逸岳* 賴聖宗*

* 高雄醫學大學附設中和紀念醫院口腔顎面外科

** 高雄醫學大學附設中和紀念醫院口腔病理診斷科

摘要

幼年性骨化纖維瘤(juvenile ossifying fibroma, JOF)為一頭頸部罕見之腫瘤，多發於兒童及年輕人，無性別上之差異，若發生於顎骨則上顎略多於下顎，特性為生長快速，臨床上會造成患處無痛性的腫脹，放射線影像為周界清晰，單腔室或多腔室放射透過性有時合併中央放射不透過性之小塊。動脈瘤性骨囊腫(aneurysmal bone cyst, ABC)則常發生於四肢骨及脊柱，顎骨的病例僅佔了2%，下顎稍多，亦多發於年輕人，也無性別上之差異，通常為生長快速並造成患處疼痛或其他不適，放射線影像為周界清晰，單腔室或多腔室放射透過性之特性。在顏面骨，幼年性骨化纖維瘤合併動脈瘤性骨囊腫則十分罕見，文獻紀錄以上顎發生者稍多。本病例為一21歲之男性，在19歲時因為左下顎骨角區腫大在某醫院接受外科手術處理，術後病理報告為骨化纖維瘤，因為復發的腫脹而來本院尋求治療，臨床檢查並無疼痛及下唇區感覺異常的問題，放射線影像為周界清晰，多腔室放射透過性合併中央放射不透過性之不規則小塊，手術方式為從口外顎下切線，做下顎骨片段式切除，並以腸骨脊海綿骨移植修補骨缺損加以顎間固定六週，術後傷口恢復及癒合良好，顎骨關係穩定無咬合異常的情況，無張口受限的問題。本病例殊屬罕見，特提出報告及相關文獻回顧。

關鍵語：幼年性骨化纖維瘤，動脈瘤性骨囊腫，骨化纖維瘤，腸骨脊骨移植。

引言

幼年性骨化纖維瘤合併動脈瘤性骨囊腫為口腔十分罕見之病變，根據所發表之文獻，多發生於年輕人及兒童，上顎稍多於下顎，目前發生原因並無定論，治療方式亦無一致見解。本文所報告之病例，為發生於左側下顎骨，原來病灶為骨化纖維瘤因術後復發，再次手術才

得知為幼年性骨化纖維瘤與動脈瘤性骨囊腫並存的診斷，本文就病灶發生經過與處置做一報告，並且就相關文獻做一綜合性探討，期能對此一罕見疾病提供致病機轉、診斷及治療之參考。

病例報告

病患為一位二十一歲的男性，於民國九十

三年八月十三日，在牙醫師介紹下到本院求診。當時的主訴是因為曾施予手術的醫師告知可能罹患血管瘤，他希望另外尋求診治的意見。根據原診治醫院之病歷摘要記載，患者在兩年前，即十九歲之時，因為左側臉頰持續約兩個月之久的腫脹於民國九十一年八月至中部某醫院接受檢查。當時臨床檢查上可以觸摸到在左側下頸骨骨角區一似骨頭硬之腫大，對應至外觀的顏面不對稱，觸診並無壓痛的情形，頸部淋巴結也無腫大。在口腔檢查部分，口腔黏膜並無白斑或其他病變，在左下頸後牙前庭區則有變淺，觸摸則和口外感覺相同，左側下頸第二大臼齒已缺失，此外，左下唇及頦部也沒有感覺異常或麻木。放射線檢查部分，從環口片可發現一周界清晰，單腔室放射透過性影像，約有 7×4.5 公分大小(圖一)，範圍從左下頸直枝上三分之一處，經由骨角區，延伸至左側下頸第二大臼齒部位的骨體區，病灶造成下頸直枝前緣及骨角區皮質骨變薄，並將未萌發的第三大臼齒推擠至第二小白齒及第一大臼齒之牙根尖處，這兩顆牙齒的牙根也有輕微吸收，但左下齒槽神經血管束(inferior alveolar neurovascular bundles)的位置則無變化。當時臨床診斷為齒源性囊腫或腫瘤(odontogenic cyst or tumor)，在門診切片檢查後病理報告為骨化纖維瘤(ossifying fibroma)，患者被安排在九十一年八月二十三日於全身麻醉下接受手術，經口內將病灶刮除(curettage)及將第二小白齒、第一與第三大臼齒拔除，傷口處理則是在骨內空腔放置碘仿紗布(iodoform gauze)。術後病理報告亦為骨化纖維瘤，並無描述其它特別發現及說明是否有合併其它疾病。

在術後追蹤過程中，發現到病人腫脹消退的情形並不明顯，甚至有變大的情況，民國九十三年二月去原醫院做放射學追蹤檢查時，發現在原病灶區中央呈現毛玻璃(glass ground glass)散射狀之放射不透過性的腫塊(圖二)，懷疑是復發的骨化纖維瘤，於是又安排在民國九十三年二月十三日進行手術。在沿著之前手術切線做切

開時，發現到有大量的出血，術中擔心為血管瘤(hemangioma)，於是僅做病灶的抽吸(aspiration)，送至細胞學檢查。術後並做血管攝影，不過兩個檢查的結果都無特別發現。

患者至本院就診後，我們發現患者除了輕微地中海型貧血外，並無全身系統性疾病及對食物或藥物的過敏病史。在牙科病史方面，除了蛀牙的填補及拔牙外，患者並沒有印象曾經接受其他特別的牙科治療。個人習慣方面，除了偶爾抽煙外，沒有喝酒及咀嚼檳榔或其他特別不良習慣。臨床檢查發現，患者的左頰呈現腫大，明顯兩頰有不對稱的情況(圖三)，觸診仍是在左下頸骨角區一似骨頭硬的腫塊，頸部亦無腫大之淋巴結，口內的檢查除了左下頸前庭區變淺，觸摸的到在下頸直枝及骨角區頰側及舌側之腫大外，並無特別發現，口腔黏膜亦是正常；神經學的檢查也沒有下唇及頦部的感覺異常或麻木感。放射學的檢查(圖四)和二月時候相較，中央的放射不透過性腫塊四周與整個病灶中間，可以發現到多腔室之放射透過性影像，範圍從喙狀突(coronoid process)及乙狀切迹(sigmoid notch)的下方，經骨角區延伸至第一小白齒部位的下頸骨體區，周界並不清晰，大小約為 7×4.8 公分；電腦斷層顯示病灶舌側及頰側之皮質骨有變薄，不過大致呈現完整，無破裂或不連續的情況(圖五)。

經由上述發現及病史，臨床診斷為復發骨化纖維瘤，但是由於前一次手術的發現，我們懷疑合併有動脈瘤性骨囊腫，並且無法排除血管瘤的可能。在和患者及其父母解釋與溝通下，決定再次手術，手術是在民國九十三年八月二十五日於全身麻醉下進行，首先從患者右側前腸骨脊骨(anterior iliac crest bone)，以H型開天窗(trap door)的方式，取下約有20 c.c.之海綿骨(cancellous bone)做為骨移植材料。接著做口外左頸下的切線，穿越闊頸肌後，將顏面動脈及靜脈分離並結紮，沿著翼咬肌懸吊帶(pterygo-masseteric sling)下方切斷懸吊帶，將皮瓣夾帶著骨膜沿著骨表面做剝離，在舌側的地方則是在

骨膜上方做剝離，將髁下區(subcondylar area)、骨角區及小白齒骨體區整個與皮瓣分離出來，在骨角區舌側的剝離時發生約有 1 公分的破洞與口內相通，隨後進行從髁下區到小白齒骨體區的片段式切除(segmental resection)，切割骨邊界並無大量出血的現象，切下的病灶區內含淡黃色清澈之液體。重建部份，先將剩餘牙齒以牙弓槓(arch bar)做頸間固定(maxillomandibular fixation)以維持咬合關係，口內破洞則以一級縫合，然後將修剪好的鈦網板(Titanium mesh plate)以螺絲固定於兩骨段，骨段間和鈦網板內則充填之前所取下的骨移植，所維持的骨高度平均有 3.5 公分高，然後將懸吊帶縫合，分層將皮瓣做一級縫合，切線下方放置邊羅士引流管。

術後檢體縱切開後(圖六)，肉眼可以看見病灶中央為固態狀(solid state)，邊緣則有許多空泡狀腔所包圍著，空泡狀腔內有未凝結血塊(unclotted blood)，固態狀腫瘤和正常骨之間可見顏色不同之界限；在光學顯微鏡下，從邊緣向中央看，正常皮質骨內面可見類骨質的小樑(trabeculae of osteoid)、織網骨(woven bone)及富含多核巨細胞(multinucleated giant cell)之纖維組織，這些形成巨觀下的空泡狀態，腔壁則沒有內襯的內皮組織，以 CD34 之特殊染色後證實此點；中央固態狀腫瘤和正常骨之間並無包囊包覆著(nonencapsulated)，但是卻有明顯之界限，腫瘤細胞組成由較為疏鬆的纖維結締組織構成，穿插著一些多核巨細胞，礦化的部分可見一個個由邊緣嗜酸性(eosinophilic)類骨質形成的小環包圍著由嗜鹼性(basophilic)同心圓狀形成的小骨(ossicles)，這是典型砂樣瘤體(psammoma body)之表現(圖七)，與正常骨之間，也見到造骨細胞與噬骨細胞包圍著，綜合以上所見，術後病理報告為幼年性骨化纖維瘤併動脈瘤性骨囊腫，其中幼年性骨化纖維瘤為砂樣瘤型(psammomatoid pattern)。

患者術後並無顏面神經麻痺以及供給部位感覺異常之後遺症，亦無步行不良之問題，在術後六週拆除頸間固定後，張口度及咬合關係

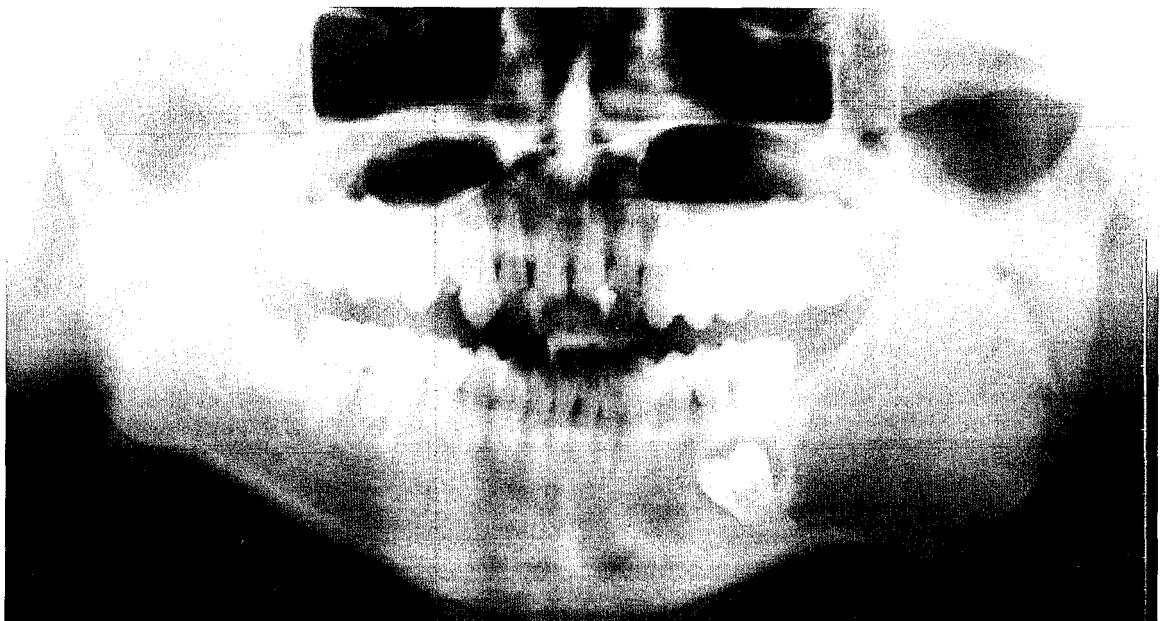
亦良好，顏面外觀並無不對稱或變形(圖八及圖九)，術後三個月及半年的放射學追蹤檢查裏，皆有明顯之新骨生成，也沒有病灶復發的情況，預計於術後一年時，再將鈦網板移除，讓患者接受進一步之牙科補綴治療，以期恢復左下顎之咀嚼功能。

討 論

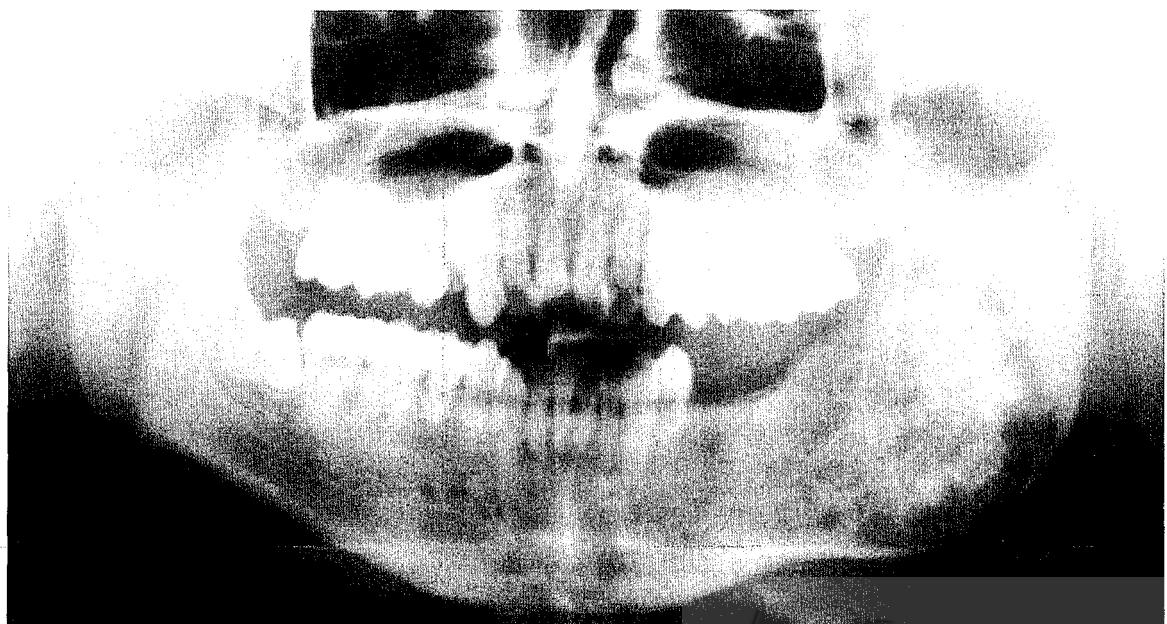
本病例的病理報告裏，除了幼年性骨化纖維瘤外，病灶邊緣合併存在動脈瘤性骨囊腫。在文獻回顧中，此類的病例相當稀少，如果以幼年性骨化纖維瘤合併其他病灶的角度來看，Makek M¹ 提到發生在顏面骨的六十九例 JOF 裏，僅有六例與動脈瘤性骨囊腫並存，年齡多分布於 10 至 20 歲間，不過並未詳述部位；Johnson LC² 則提出發生於上顎骨的 JOF，比較容易產生並存之動脈瘤性骨囊腫；Miloro M³ 則認為砂樣瘤型 JOF 的類黏液組成的部分較容易產生動脈瘤性骨囊腫；最近的一病例則為 Noffke CEE⁴ 所提出，亦發生於下顎骨，不過並未提及 JOF 的病理分類(見表一)。

若以動脈瘤性骨囊腫合併其他病灶的角度來看，Struthers PJ¹⁴ 等的文獻報告裏，發生於顎骨的病例(46 例)中，有 43 例和其他疾病並存，其中有 32 例為巨大細胞肉芽腫(giant cell granuloma)，5 例為骨化纖維瘤，僅佔 11.6%。Struthers PJ 在另一篇文獻則提到¹⁵，骨內巨大細胞肉芽腫的病例產生動脈瘤性骨囊腫的機會最大，骨化纖維瘤的機會並不大；Kershishnik M¹⁶ 等整理出報告過的病例，分別為纖維性發育異常(fibrous dysplasia)、骨化纖維瘤、巨大細胞肉芽腫及牙骨質化纖維瘤(cementifying fibroma)；後來 Padwa BL 等¹⁷ 所整理的文獻中，與動脈瘤性骨囊腫並存之原發病例種類亦無太大差別。

JOF 合併 ABC 的成因目前並沒有定論，不過一般認為是 JOF 內產生繼發性的 ABC 比較合理，本病例在第一次手術後的病理報告為骨化纖維瘤，所以也比較符合上述說法。El-Mofty S¹⁸ 認為是 JOF 內的基質(stroma)因為噬骨細胞進



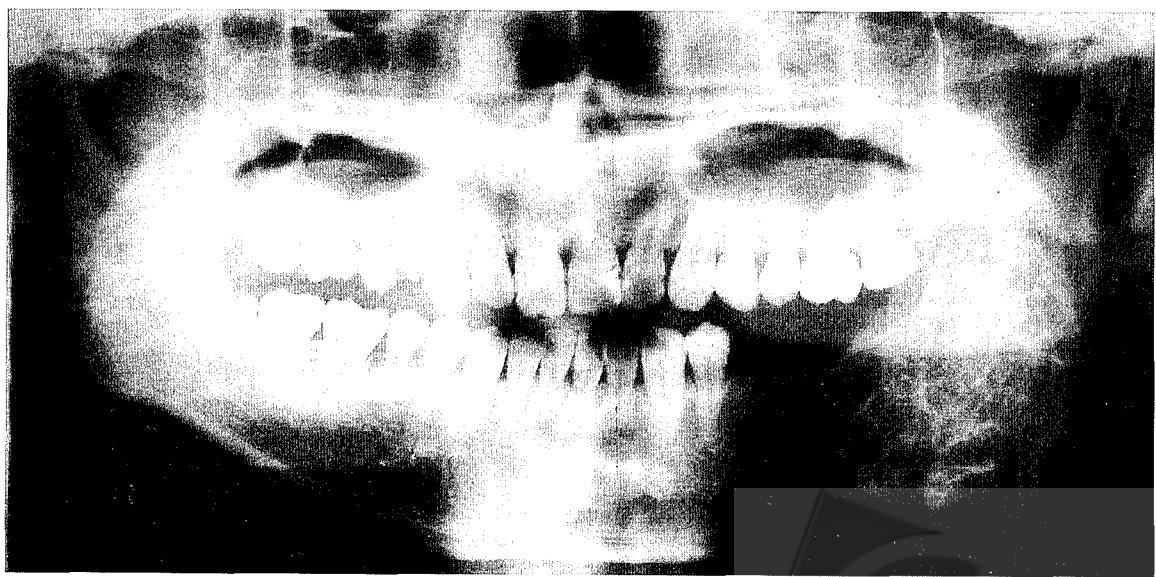
圖一 患者於原診治醫院治療前所照之環口片(91/08/13)，從左下顎直枝上三分之一處延伸至左下第二小白齒部位之一周界清晰，單腔室放射透過性的病灶，大小約 7×4.5 公分



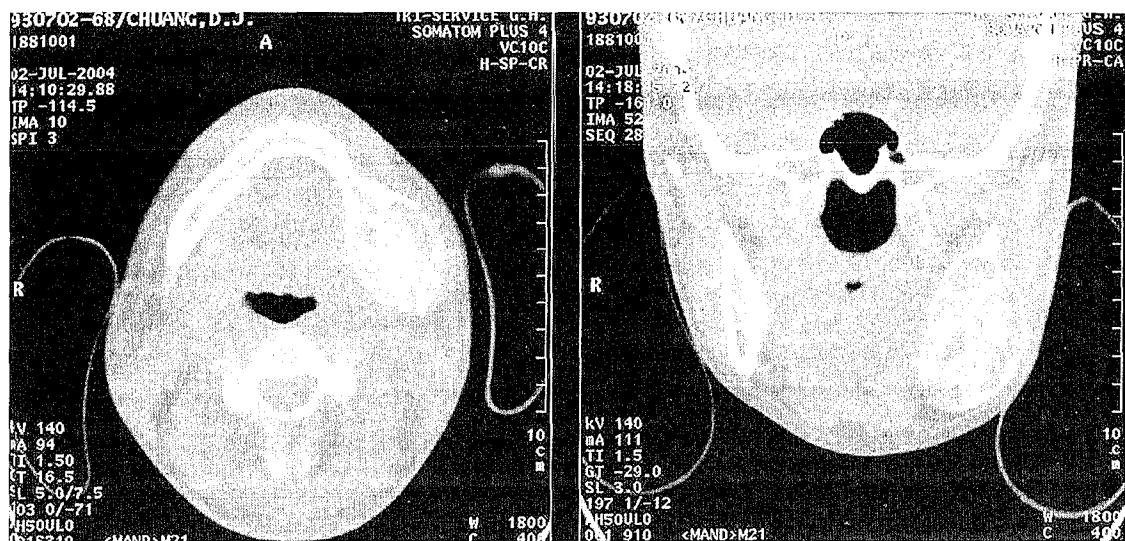
圖二 首次手術術後一年半追蹤，病灶復發的情況，可發現在原病灶區中央呈現毛玻璃散射狀之放射不透過性的影像(93/02/02)



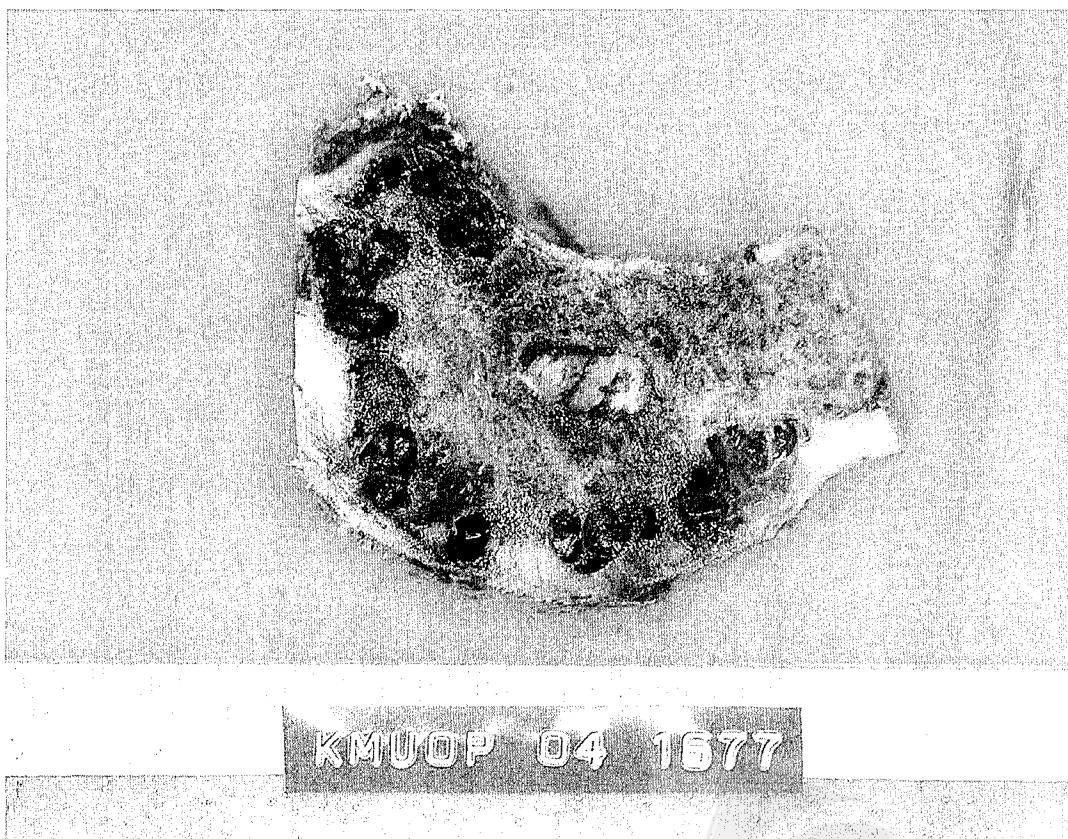
圖三 患者左頰及左側下顎骨角區呈現無痛性之腫大



圖四 患者至本院就診時的變化，可以發現在中央的放射不透過性腫塊四周與整個病灶中間充滿著多腔室之放射透過性影像(93/08/17)



圖五 電腦斷層檢查，與環口片相較並無不同(93/07/02)



圖六 病灶切除後之縱切面，骨切面右側為前緣，左上方為後緣，可見病灶邊緣被許多內含未凝結血塊之空泡狀腔所包圍著



圖七 典型砂樣瘤體於鏡下的表現，可見一個個由邊緣嗜酸性類骨質形成的小環包圍著由嗜鹼性同心圓狀形成的小骨(H. and E. stain, original magnification $\times 400$ 倍)



圖八 患者術後六週的正面及側面觀，並無不對稱或變形(93/10/09)



圖九 術後六週拆除頸間固定前的環口片，清楚可見所放置的骨移植材料(93/10/09)

入，產生局部黏液組織的變化，形成一個個空腔，血液進入空腔並且造成組織向外擴張所致，空腔則由很薄的纖維組織所包圍著。本病例在第一次手術雖然沒有合併其它疾病，但以患者術後顏面的腫脹沒有改善看來，ABC 也有可能是因手術時刮除病灶所造成的血管受損，引發立即血液進入骨空腔所致，這可從本病例併發的 ABC 分布於邊緣，介於正常骨與 JOF 之間來印證。

至於主病灶—幼年性骨化纖維瘤，因為發表時間及病理形態上的不同，而有不同之名稱，如 juvenile ossifying fibroma，juvenile active ossifying fibroma (JAOF)，aggressive ossifying fibroma (AOF)，reticular desmo-osteoblastoma 或是 active fibrous dysplasia，由名稱“幼年性”意含著這個疾病主要發生在兒童身上，根據世界衛生組織的分類及定義¹⁹，JOF 一辭用在發生於 15 歲以下之兒童，Slootweg²⁰等學者提出約 79% 的病例發生在 15 歲以下，不過 Waldron²¹等提出發病年齡從未滿六歲至超過 70 歲者皆有病例報告，如果以組織病理下去細分，骨小樑型(trabecular pattern)者平均年齡為 11 歲，若是砂樣瘤型

(psammomatoid pattern)者之平均年齡則為 22 歲，本病例由於是第二次手術切除後才得知為 JOF，確切的發病時間無法得知，不過離第一次產生骨化纖維瘤的時間(19 歲)也超過 15 歲了，另外砂樣瘤型的 JOF 則是與 Waldron 的報告相符；在發生部位上，每個學者所提出的好發部位並不一致，從眼框骨、額骨、篩骨、副鼻竇、上下顎骨皆有，Slootweg¹³的報告以上顎居多，Johnson²等則提出 90% 的顏面骨病例發生於副鼻竇，僅 10% 發生於下顎骨，Leimola-Virtanen⁸等之報告則以下顎骨居多，若在下顎骨，則位於大臼齒區²，一般認為與大臼齒牙周韌帶之未分化細胞的發育有關⁵，Miloro M³進一步提出，骨小樑型多發生於上顎骨，砂樣瘤型則多發生於眼框骨及副鼻竇；發生性別部分，Johnson²的研究以女性稍多，不過其他多數報告則並無性別之差異，表一為綜合近年來發生於顎骨之英文文獻之整理，可以發現近五年的文獻則幾乎發生於下顎，而本病例亦然，與 Miloro 的報告並不相符。

在臨床表現上，如果是發生在副鼻竇的患者，由於向上侵犯穿越眼框骨、鼻骨的關係，

表一 近十年文獻發表之幼年性骨化纖維瘤病例整理

作者	發表年份	病例數	發生(或平均)年齡	性別	部位	處置	合併其他病兆或附註
Saiz-Pardo-Pinos AJ et al ⁵	2004	1	4	M	右下頸骨角區	Excision + curettage	左下頸齒根尖囊腫
Rinaggio J et al ⁶	2003	1	14	M	左下頸直枝、骨角區及骨體區	Peripheral osteotomy	N
Zama M et al ⁷	2003	1	6	M	右下頸直枝、骨角區及骨體區	Enucleation + curettage (then hemimandibulectomy)	N
Leimola-Virtanen et al ⁸	2001	1	10	M	右下頸骨體區	Excision + curettage	N
	2001	1	8	F	左下頸直枝及骨角區	Excision + curettage (2 nd)	N
Zupi et al ⁹	2000	1	24	F	右下頸骨體區	hemimandibulectomy	N
	2000	1	30	F	右下頸副連合處至骨角區	Blunt dissection	N
Williams HK et al ¹⁰	2000	8	10(5-15)	M:5 F:3	下頸骨: 7 例 上頸骨: 1 例	沒有敘述	沒有敘述
Halkias LE et al ¹¹	1998	1	6	M	右下頸直枝、冠狀突、骨角區及骨體區	Excision	N
Noffke CEE ⁴	1998	1	8	M	左下頸直枝、骨角區及骨體區	Hemimandibulectomy	Aneurysmal bone cyst
Wiedenfeld KR et al ¹²	1995	1	6	M	左上頸及鼻竇	Excision	N
Slootweg PJ et al ¹³	1994	10	11.8(2-25)	M:6 F:4	上頸骨: 6 例 下頸骨: 4 例	9 例接受 excision	JOF-WHO
		23	22.6(7-59)	M:13 F:10	上頸骨: 6 例 下頸骨: 16 例 副鼻竇: 2 例	20 例接受 curettage 1 例接受 resection	JOF-PO

可能會伴隨著鼻塞，凸眼(exophthalmos)之表現^{13,22}；發生在顎骨的話，一開始沒有任何症狀，多數的患者都是在顏面外觀上有異狀，或是在常規牙科放射線檢查中，才會被發現到，口內觸摸可感覺到堅硬的腫塊，口腔黏膜呈現正常顏色，患處可能伴隨著牙齒的咬合不良；在神經學上，在所回顧的文獻裏及本病例中，觸摸並不會疼痛，下唇及頰部也沒有感覺異常或麻木的情況；在放射線檢查裏，病灶呈現出周界清晰，單腔室或多腔室放射透過性有時合併中央放射不透過性之小塊，看來似毛玻璃狀，

病灶會將皮質骨擴張變薄，甚至產生貫穿⁴而和鄰近軟組織相連，亦將未萌發之牙齒移位，但一般並不會造成牙根的吸收。

在組織病理上，JOF 可以區分出兩種形態¹³，一為骨小樑型，另一為砂樣瘤型，兩者都無包囊包覆著，腫瘤細胞皆由纖維結締組織組成，偶有黏液狀焦點(myxomatous foci)及多核巨大細胞叢集出現，兩者的區別在礦化的部分；骨小樑型的特徵為礦化外型不規則的類骨質成串地分布，被豐富的造骨細胞所包圍²¹；砂樣瘤型則是邊緣嗜酸性類骨質形成的小環包圍著由嗜鹼

性同心圓狀形成的小骨，外圍的小環有時呈現放射狀纖維一般伸進基質(stroma)內，不論是哪一種形態，和正常骨之間都有明顯的周界存在。

動脈瘤性骨囊腫則一般多發生於小於三十歲患者之長骨(long bone)或脊柱，發生於顎骨者非常罕見，大約僅佔 2%²³，發生於顎骨的病例中¹⁴，下顎略多於上顎，亦多發生於 30 歲以下。在發生性別上，並無明顯的差異²³。在臨床表現上，由於生長速度很快，一般會呈現腫脹，有時會伴隨疼痛或是軟組織被拉緊撐大的不適，患處牙齒亦可能有咬合不良、牙齒動搖、移位甚至牙齒吸收的情況。放射線學檢查裏，病灶呈現周界清晰，單腔室或多腔室放射透過性之特性，看來如肥皂泡(soap bubble)，鄰近皮質骨會有擴張、變薄的變化，有時會貫穿皮質骨到軟組織^{14,23}。組織病理上，鏡下呈現典型由富含多核巨細胞之纖維組織、類骨質的小樑及纖網骨所形成的空泡狀態，裡面有未凝結的血塊，與血管瘤不同，動脈瘤性骨囊腫的腔壁並沒有內襯的內皮組織。

動脈瘤性骨囊腫的成因仍未有定論，不過目前較為接受的說法可區分為原發性(primary)與繼發性(secondary)，其中繼發性的動脈瘤性骨囊腫意指由骨內一原發病變，因血液動力學(vascular dynamics)的改變，如局部變性(focal degeneration)或出血進入病變的纖維組織所形成。

目前對於 JOF 的治療方式仍然具有爭議性，從保守性的處置，如剜出術(enucleation)、刮除術(curettage)到較為積極性的手術，如片段式切除等皆被報告過，復發率約介於 30 至 58% 之間²⁴，由此可見病灶並不容易移除，尤其是發生於上顎骨或副鼻竇時。儘管如此，多數的學者仍建議先以保守性的治療，再做術後密集的追蹤，主要考量在於多數患者年齡尚幼，較積極性治療對於外觀、咀嚼功能影響甚大，術後照顧、口腔衛生照顧也不易配合；若是發生於下顎骨，下顎骨生長趨勢也必須被考慮進來，此時會比較建議以保守性治療為主；如果發生

復發，復以較積極性治療亦可，而所報告過復發的病例裏，再手術後皆無出現再復發的情況；在動脈瘤性骨囊腫的治療方面也是一樣，從刮除術到片段式切除顎骨等都被提出，刮除術的復發率約從 20% 到 60%，腫瘤切除(excision)的復發率則為 11%，如果再加上冷凍治療(cryotherapy)的復發率則是 8%¹⁶，歸納多數學者意見，我們認為復發的原因有二，一是原病灶並沒有完整移除，其中可能是手術操作不易或是病灶鄰近重要組織；另一原因則是伴隨著動脈瘤性骨囊腫的其他病灶沒有完整移除，例如之前所提到的巨細胞肉芽腫或是骨化纖維瘤。儘管容易復發，與 JOF 相同，多數學者亦建議以保守性治療為主，考量因素也是一樣。在回顧的文獻中，雖無對於 JOF 合併 ABC 的治療有所著墨，亦無復發率的統計，不過我們認為治療 JOF 合併 ABC 仍應該就 JOF 及 ABC 個別病理及臨床特徵去考慮，綜合上述所以可先予以保守性治療，若復發或者病灶過大，再施予較積極性治療即可。本病例發生的時候患者已經成年，下顎骨的發育亦趨停止，加上已經是復發，術前的診斷又無法排除血管瘤之可能，故在和患者及家屬的溝通下，採取較積極性的處置，術中雖然無大量出血，但由於骨角區舌側不易剝離，而且有口內相通的情況，在懷疑已有骨外的蔓延生長下，仍決定維持原先的治療計畫。

與多數學者一致，我們認為不論患者接受何種方式的治療，由於 JOF 或 ABC 皆容易復發，術後密切追蹤甚為重要，在五年內，無論放射線學及臨床檢查都要十分謹慎。關於本病例，患者術後追蹤並無異常，張口及顎頸關節功能亦趨正常，在移除鈦網板後可考慮先以保守性補綴重建其咀嚼功能，待新骨生成穩定後再以植體方式恢復其功能。我們在此提供這罕見病例，期能作為日後相關病例之診斷及治療的參考。

參考文獻

1. Makek M: Clinical pathology of fibrooste-

- cemental lesions in the craniofacial and jaw bones. A new approach to differential diagnosis. Basal: Karger. 162-4, 1983.
2. Johnson LC, Yousefi M, Vinh TN, Heffner DK, Hyams VJ, Hartman KS: Juvenile active ossifying fibroma: Its nature, dynamics and origin. *Acta Otolaryngol Suppl* 488: 1-40, 1991.
 3. Miloro M: Peterson's principles of oral and maxillofacial surgery (ed.2) Hamilton, London, BC Decker Inc.600, 2004.
 4. Noffke CEE: Juvenile ossifying fibroma of the mandible. An 8 year radiological follow-up. *Dentomaxillofac Radiol* 27: 363-6, 1998.
 5. Saiz-Pardo-Pinos AJ, Olmedo-Gaya MV, Prados-Sanchez E, Vallecillo-Capilla M: Juvenile ossifying fibroma: a case study. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 9: 454-8, 2004.
 6. Rinaggio J, Land M, Cleveland DB: Juvenile ossifying fibroma of the mandible. *J Pediatr Surg* 38: 648-50, 2003.
 7. Zama M, Gallo S, Santecchia L, Bertozzi E, Stefano CD: Juvenile Active Ossifying Fibroma with Massive Involvement of the Mandible. *Plast Reconstr Surg* 113(3): 970-4, 2004.
 8. Leimola-Virtanen R, Vahatalo K, Syrjanen S: Juvenile active ossifying fibroma of the mandible: a report of 2 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 59: 439-44, 2001.
 9. Zupi A, Ruggiero AM, Insabato L, Senghore N, Califano L: Aggressive cemento-ossifying fibroma of the jaws. *Oral Oncol* 36: 129-33, 2000.
 10. Williams HK, Mangham C, Speight PM: juvenile ossifying fibroma. An analysis of eight cases and a comparison with other fibro-osseous lesions. *J Oral Pathol Med* 29: 13-8, 2000.
 11. Halkias LE, Larsen PE, Allen CM, Steiberg MJ: Rapidly growing, expansile mass of the mandible in a 6-year-old boy. *J Oral Maxillofac Surg* 56: 866-71, 1998.
 12. Wiedenfeld KR, Neville BW, Hutchins AR, Bell RA, Brock TR: Juvenile ossifying fibroma of the maxilla in a 6-year-old male: case report. *Pediatr Dent* 17(5): 365-7, 1995.
 13. Slootweg PJ, Panders AK, Koopmans R, Nikkels PG: Juvenile ossifying fibroma. An analysis of 33 cases with emphasis on histopathological aspects. *J Oral Pathol Med* 23: 385-8, 1994.
 14. Struthers PJ, Shear M: Aneurysmal bone cyst of the jaws, (I) clinicopathological features. *Int J Oral Surg* 13: 85-91, 1984.
 15. Struthers PJ, Shear M: Aneurysmal bone cyst of the jaws, (II) Pathogenesis. *Int J Oral Surg* 13: 92-100, 1984.
 16. Kershishnik M, Batsakis JG: Aneurysmal bone cyst of the jaws. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 103: 164-5, 1994.
 17. Padwa BL, Denhart BC, Kaban LB: Aneurysmal bone cyst- "Plus": A report of three cases. *J Oral Maxillofac Surg* 55: 1144-1152, 1997.
 18. El-Mofty S: Psammomatoid and trabecular juvenile ossifying fibroma of the craniofacial skeleton: Two distinct clinicopathologic entities. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 93: 296-304, 2002.
 19. Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M: World Health Organisation International Histological Classification of Tumours. Histological typing of Odontogenic Tumours (ed.2). Berlin: Germany, Springer-Verlag. 28, 1992.
 20. Slootweg PJ, Muller H: Juvenile ossifying fibroma. Report of four cases. *J Cranio-*

- maxillofac Surg 18: 125, 1990.
21. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE: Oral & Maxillofacial Pathology, (ed.2) Philadelphia: WB Saunders. 564-66, 2002.
22. Margo CE, Ragsdale BD, Perman KI, Zimmerman LE, Sweet DE: Psammomatoid (juvenile) ossifying fibroma of the orbit.
- Ophthalmol 92: 150-9, 1985.
23. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE: Oral & Maxillofacial Pathology, (ed.2) Philadelphia: WB Saunders. 551-2, 2002.
24. Waldron CA: Fibro-osseous lesions of the jaws. J Oral Maxillofac Surg 51: 828, 1993.

Juvenile Ossifying Fibroma with Aneurysmal Bone Cyst of Mandible: A Case Report

Buor-Chang Wu*, Yuk-Kwen Chen**, I-Yueh Huang* and Sheng-Tsung Lai*

* Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Dentistry, Kaohsiung Medical University Chung-Ho Memorial Hospital

** Division of Oral Pathology, Department of Dentistry, Kaohsiung Medical University Chung-Ho Memorial Hospital

Abstract

The juvenile ossifying fibroma (JOF) is an uncommon neoplasm in head and neck. It occurs predominantly in maxilla of child and young adult without significant sexual predilection. Clinically it develops in a rapid, persistent growth and causes in facial asymmetry. It shows well-demarcated, multilocular or unilocular radiolucency but contains central radiopacities in some cases. The aneurysmal bone cyst (ABC) occurs most commonly in long bone or vertebral column and only 2% in jaws from reported cases. It occurs predominantly in mandible of young adult without significant sexual predilection. It also develops in rapid swelling and pain. Radiographic study shows well-demarcated, unilocular or multilocular radiolucent lesion. Cases of JOF combined ABC are very rare in jaw bone and most of them occurred in maxilla. Here we present a case of 21 year-old male who suffered from recurrent swelling in left side of mandible which had received surgery for ossifying fibroma in another hospital when he was 19 years old. Obvious facial asymmetry was noted but no sensory dysfunctions were detected. The lesion showed well-demarcated, multilocular radiolucency but radiopacity centrally. We applied segmental resection via extra-oral approach and reconstructed with anterior iliac crest bone graft. After removal of MMF in six week, the wound healed well and joint function was good without malocclusion. After follow-up of one year, no recurrences were noted. He also got good esthetics although receiving aggressive treatment.

Key words: juvenile ossifying fibroma, aneurysmal bone cyst, ossifying fibroma, iliac crest bone graft.

Received: March 11, 2005

Accepted: June 28, 2005

Reprint requests to: Dr. I-Yueh Huang, Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department of Dentistry, Kaohsiung Medical University Chung-Ho Memorial Hospital