

Keratocyst odontogenic tumor sebagai diagnosis banding unicystic ameloblastoma ***Keratocyst odontogenic tumor as differential diagnosis of unicystic ameloblastoma***

L Epsilawati, R Firman, F Pramani, Y Ambarlita, I Risky, Merry

Departement Radiology Kedokteran Gigi,
Fakultas Kedokteran Gigi, Universitas Padjadjaran
Bandung, Indonesia
E-mail: lusifkg92@gmail.com

ABSTRAK

Odontogenic keratocyst tumor (KCOT) merupakan tumor jinak odontogenik yang memiliki sifat rekurensi yang sangat mudah. Awalnya jenis tumor ini tergolong ke dalam kista odontogenik, akan tetapi pada tahun 2014 berubah menjadi tumor jinak karena sifatnya yang ekspansif, destruktif dan memiliki kecenderungan *high recurrence*. Secara radiografi gambarannya menyerupai ameloblastoma sehingga secara sangat sulit dibedakan terutama apabila lesi tunggal. Dilaporkan seorang laki-laki berusia 16 tahun datang ke RGSM dengan keluhan benjolan di pipi kanan sejak 1 tahun yang lalu. Pemeriksaan ekstraoral teraba adanya benjolan kenyal, bergerak, tidak sakit dan tidak ada tanda-tanda peradangan dengan diameter 3-4 cm dimulai dari area sendi temporomandibula (STM) kanan hingga superior mandibula. Pemeriksaan dilakukan dengan menggunakan panoramik serta CBCT. Berdasarkan pemeriksaan terlihat lesi radiolusen sangat luas yang menyebabkan STM kanan dan daerah tuberositas kanan menghilang. Lesi sangat luas dan dicurigai sebagai ameloblastoma. Diketahui pada usia 10 tahun pasien pernah mengalami KCOT di regio mandibula anterior dan kanan yang diterapi dengan marsupialisasi, sehingga dicurigai lesi ini adalah kekambuhan dari KCOT. Disimpulkan bahwa lesi merupakan ameloblastoma dengan karakteristik KCOT masih tergambar di dalam jaringan. Hal ini mungkin disebabkan *recurrent* pasca marsupialisasi KCOT, sehingga terbentuk pencampuran jaringan. *Unicystic ameloblastoma* dan KCOT tidak dapat dibedakan secara spesifik dengan pemeriksaan radiografi, oleh karena itu pemeriksaan histopatologi tetap harus dilaksanakan.
Kata kunci: KCOT, recurrent lesi, ameloblastoma

ABSTRACT

Odontogenic keratocyst tumors (KCOT) are odontogenic benign tumors that have a tendency to recur very easily. Initially this type belonged to odontogenic cysts but in 2014 it turned into a benign tumor due to its expansive, destructive and highly recurring tendency. Its radiography is similar to ameloblastoma, so that the radiographic picture is very difficult to distinguish, especially if a single lesion. It was reported that a 16-year-old male patient came to RGSM with a chief complaint that there was a swelling on the right cheek 1 year ago. Extra oral examination is felt to be chewy, moving, and painless and there are no signs of inflammation with a diameter of 3-4 cm starting from the right TMJ area to the superior of mandibular. Inspections are carried out using panoramic and CBCT. Based on the examination, it was seen that the radiolucent lesions were very wide which caused the right TMJ and the right tuberosity area to disappear. The lesion is very wide and is suspected of being ameloblastoma. However, it was known that at the age of 10 patients had experienced KCOT in the anterior and right mandibular regions, treated with marsupialization, so this was suspected to be a recurrence of KCOT. It was concluded that the case was an ameloblastoma lesion with the characteristics of KCOT are still reflected in the tissue contents. This is possible due to recurrent after KCOT marsupialization, so that tissue mixing is formed. Unicystic ameloblastoma and KCOT cannot be differentiated specifically only by radiographic examination, therefore histopathological examination must be carried out.

Key word: KCOT, recerent lesion, ameloblastoma

PENDAHULUAN

Keratocyst odontogenic tumor (KCOT) adalah tumor jinak odontogenik yang berasal dari jaringan epitel. KCOT pertama kali diidentifikasi dan dijelaskan pada tahun 1876 dan dicirikan oleh Phillipsen pada tahun 1956.¹ Pindborg dan Hansen mengklasifikasikan kriteria histologis yang dapat diaplikasikan untuk mendiagnosis KCOT pada tahun 1962.² KCOT Secara

terminologi berasal dari kista primordial, karena asal lesi dianggap sebagai gigi primordium.² Pada tahun 1992, WHO menggunakan kriteria histologi, dan menetapkan bahwa KCOT termasuk golongan tumor odontogenik dengan nama *odontogenic keratocyst* (KCOT).³ KCOT dikenal dengan tingkat kekambuhan yang tinggi, perilaku agresif, dan berhubungan dengan sindrom karsinoma sel basal nevoid.¹ Berdasarkan

gambaran histologis, KCOT terdiri atas tiga tipe yaitu parakeratin, ortokeratin, dan kombinasi keduanya.⁴

Ameloblastoma adalah tumor epitel odontogenik dapat bersifat jinak atau ganas dan lebih sering terjadi di rahang bawah. Tumor ini berkembang perlahan, lesi yang dihasilkan dapat menyebabkan kelainan pada wajah dan rahang yang parah. Selain itu, karena pertumbuhan sel yang abnormal, sel-sel ini mudah menginfiltrasi dan menghancurkan jaringan tulang di sekitarnya.⁵⁻⁷ Ada tiga tipe dari ameloblastoma, yaitu *unicystic*, *multicystic*, dan *peripheral*.⁸ Ameloblastoma sering dihubungkan dengan gigi yang tidak erupsi. Gejalanya meliputi pembengkakan yang tidak sakit, deformitas wajah, kadang nyeri apabila bengkakan berhubungan dengan struktur lain, kehilangan gigi, dan penyakit periodontal. Lesi cenderung meluas ke arah korteks tulang, karena pertumbuhan lesi lambat, membuat periosteum terekspansi sehingga tulang kortikal dapat terputus. Previous tulang terkadang retak sehingga dalam pemeriksaan terdengar krepitasi. Untuk memastikan kasus diperlukan pemeriksaan histologi.⁸

Artikel ini membahas mengenai pemeriksaan secara radiografi dan histopatologi kasus *keratocyst odontogenic tumor* (KCOT) sebagai diagnosis banding *unicystic ameloblastoma*.

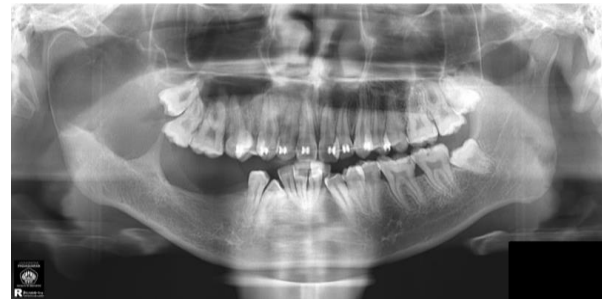
KASUS

Seorang pasien laki-laki berusia 16 tahun datang ke RSGM dengan keluhan adanya benjolan pada pipi kanan sejak satu tahun yang lalu. Benjolan ini dulunya kecil akan tetapi semakin hari semakin membesar. Pemeriksaan ekstraoral teraba adanya massa dengan luas $\pm 3 \text{ cm}^2$, di regio mandibula sekitar daerah parotis kanan. Massa meluas dari TMJ kanan hingga pipi kanan, kenyal, dapat digerakkan, tidak sakit, dan tidak ada tanda-tanda peradangan. Pemeriksaan intraoral terlihat gigi pada rahang bawah kanan hilang 45, 46, 47, 48 pada sudut mulut terlihat adanya massa meluas hingga maksila, bukaan mulut sejauh dua jari. Hal yang selanjutnya dilakukan adalah pemeriksaan panoramik dan CBCT. Berdasarkan anamnesis diketahui bahwa pasien pernah menderita KCOT pada usia 10 tahun pada regio anterior dan posterior kanan rahang bawah, dan telah dilakukan perawatan. Diagnosis pada kasus pertama adalah KCOT dengan terapi marsupialisasi serta ekstraksi gigi posterior rahang bawah.

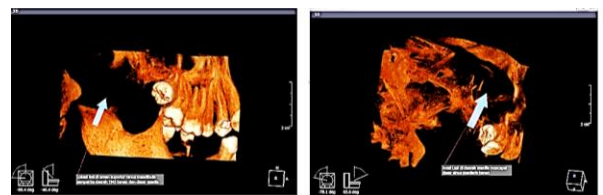
PENATALAKSANAAN

Berdasarkan pemeriksaan panoramik (gambar 1) dan CBCT (gambar 2) pasien terlihat adanya massa di ramus hingga STM kanan meluas hingga eminensia pada maksila kanan. Lesi radiolusen dengan batas jelas, *well define*, hanya sebagian terkortikasi (Gambar 3).

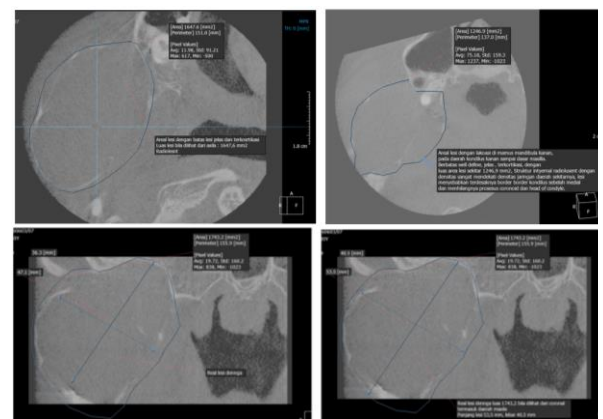
Lesi mendestruksi tulang sehingga STM, ramus, dan eminensia kanan menghilang. Lesi berada di area B



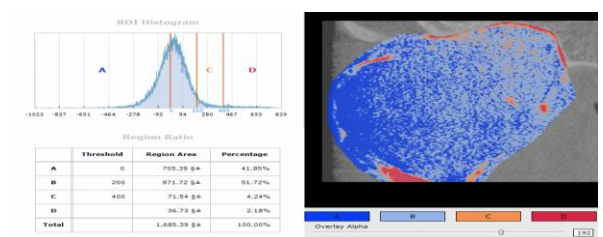
Gambar 1 Radiografi panoramik pasien. Terlihat gigi posterior rahang bawah menghilang pasca terapi marsupialisasi 6 tahun yang lalu. Massa baru terlihat di area STM kanan hingga di area ramus mandibula kanan.⁹



Gambar 2 Gambaran 3D dari CBCT pasien, terlihat pasien kehilangan tulang pada bagian ramus kanan termasuk STM dan eminensia kanan, selain terlihat area massa yang cukup luas.⁹



Gambar 3 Terlihat gambaran massa dengan konten radiolusen, berbatas jelas, *well define*, dengan luas sekitar 3 cm^2 .⁹



Gambar 4 Histogram pemeriksaan CBCT massa. Terlihat konsistensi massa berada di area B, hampir 90% serta area warna lebih banyak di A dan B sebagian kecil area C dan D.⁹

dan A minimal pada pemeriksaan histogram. Hal ini menunjukkan bahwa lesi berupa massa jaringan; kecenderungan cairan ataupun udara terlihat kecil (Gambar 4).

PEMBAHASAN

Ameloblastoma dan KCOT adalah jenis tumor odontogenik yang utamapada rahang dan sangat erat hubungannya dengan gigi yang tidak erupsi.¹⁰ Kedua jenis tumor memiliki sifat sangat agresif atau potensi menjadi neoplasma dan cenderung kambuh.¹⁰⁻¹¹ Pemeriksaan dan diagnosis yang tepat diantara kedua tumor ini sangat membantu para ahli melakukan terapi. Ameloblastoma biasanya diterapi dengan reseksi dan sampai hemimandibulektomi apabila dinilai sangat infiltratif dan luas, sedangkan KCOT biasanya diobati dengan enokluasi atau marsupialisasi tergantung besar lesi.¹² Akan tetapi, KCOT memiliki karakter tersendiri yakni apabila kapsul kistik tertinggal pada saat terapi maka kekambuhan bisa dipastikan terjadi. Oleh karena itu para ahli terkadang memutuskan untuk melakukan reseksi pada kasus tertentu.¹³⁻¹⁴

Tumor KCOT adalah tumor jinak lokal yang agresif yang terjadi pada tulang kedua rahang dengan tingkat kekambuhan yang tinggi, dengan prevalensi kasus terbanyak pada usia dekade ke-2.¹⁻² Gambaran klinis KCOT yang perlu menjadi perhatian adalah potensi perilaku destruktif, tingkat kekambuhan yang cepat, serta cenderung untuk multilesi terutama bila dikaitkan dengan sel basal nevoid sindrom karsinoma.

Baru-baru ini ada banyak tumor odontogenik yang dikatakan sebagai lesi ekstraoseus, akan tetapi berbeda dengan KCOT yang tetap digolongkan lesi intraosseous dengan alasan lokasi lesi yang lebih ke perifer.¹⁵⁻¹⁶ Perubahan KCOT yang dulunya tergolong dalam kista menjadi tumor telah lama diperdebatkan, dan akhirnya pada tahun 2014 diputuskan OKC yang tadinya tergolong kista berubah menjadi golongan tumor jinak dengan nama baru, KCOT.¹⁷⁻¹⁹ Beberapa faktor, seperti perilaku agresif kista, aktivitas mitosis tinggi secara histologis, dan bukti kelainan genetik dan kromosom terkait, misalnya mutasi gen PTCH, yang sering terlihat pada neoplasia, menjadi dasar untuk klasifikasi baru ini.¹⁹⁻²¹

Pada umumnya KCOT dianggap berasal dari sisa lamina gigi, pengaruh traumatis atau pertumbuhan sel basal di permukaan epitel atau epitel email gigi dari folikel gigi. Beberapa studi telah membuktikan bahwa kausa genetik, khususnya penyimpangan gen PTCH, merupakan faktor pemicu timbulnya tumor ini.²²

Secara klinis, KCOT terasa sebagai pembengkakan, dengan atau tanpa rasa nyeri,²²⁻²³ tumbuh di dalam ruang medular tulang dalam arah anteroposterior, dan menyebabkan ekspansi.²³ Ekspansi bukal tercatat

sekitar 30% dari maksila dan 50% lesi mandibular, terdapat aktivitas kolagenase pada epitel tumor dengan sifat meresorpsi sehingga mengurangi efek tumbuh secara ekspansif dalam tulang.²³⁻²⁴ Secara radiografi, KCOT terlihat sebagai lesi radiolusen, *well define*, uni- atau multilokuler, dengan tepi halus dan biasanya terkortikasi, kecuali jika telah terinfeksi sekunder. Pada 25-40% kasus, terdapat gigi tidak erupsi yang terlibat pada lesi.²⁵ Gigi yang berdekatan mungkin tergeser akan tetapi jarang terjadi resorpsi. Lesi pada maksila cenderung lebih kecil dari lesi mandibula, akan tetapi keterlibatan tulang cancellous lebih luas.²⁶ Lesi yang lebih besar dapat menyebabkan ekspansi tulang, disertai perforasi atau pun tidak pada bagian korteks tulang.³



Gambar 5 Terlihat permukaan lesi dengan I-Cat; gambaran ekspansi lesi ke arah anteroposterior, tampak terjadi resorpsi pada gigi.¹⁴

Secara radiografi, untuk membedakan gambaran KCOT dengan lesi odontogenik lainnya cukup sulit. KCOT dapat menyerupai gambaran lesi kista residu, kista dentigerous, kista periodontal lateral, kista di nasopalatine atau bahkan ameloblastoma unikistik.²⁷ Kesalahan diagnosis akan membawa efek pada terapi yang akan dipilih. Bila KCOT dibandingkan dengan lesi ameloblastoma sangat sulit dibedakan terlebih jika keduanya berbentuk unikistik. Ameloblastoma biasanya hadir dengan gambaran yang khas dengan pola ekspansi klinis yang signifikan, yaitu ke arah lateral disertai resorpsi tulang dan gigi, sedangkan KCOT memiliki sifat yang sebaliknya.²⁶

Ameloblastoma adalah neoplasma jinak agresif, berasal dari epitel odontogenik, merupakan golongan tumor odontogenik. Ameloblastoma bisa digolongkan dalam beberapa kelompok berdasarkan tampilannya, terapi, serta prognosisnya. Sedangkan berdasarkan bentuknya dibedakan atas ameloblastoma multikistik atau konvensional, ameloblastoma unikistik, serta ameloblastoma perifer.²⁶

Pada kasus ini, ameloblastoma unikistik adalah diagnosis pasien. Ameloblastoma adalah jenis tumor odontogenik epitel jinak dari rahang yang tumbuh lambat, secara lokal, agresif dan menyumbang sekitar

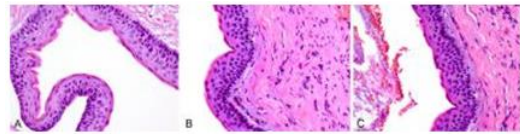
10% dari semua tumor odontogenik pada rahang. Sebagian besar kasus terdiagnosis pada usia dewasa muda, dengan usia rata-rata 35 tahun, dan tidak ada kecenderungan terhadap gender.²⁶ Sekitar 80% dari ameloblastoma terjadi pada mandibula, biasanya di daerah posterior.^{26,27} Ameloblastoma di intraoral akan menyebabkan maloklusi, kegoyangan gigi, parestesia dan nyeri, invasif lokal dan menyusup melalui ruang medular yang dapat mengikis tulang kortikal.²⁷

Ameloblastoma sering diketahui secara tidak sengaja pada pemeriksaan radiografi dan merupakan lesi yang asimtomatis.²⁶ Lesi biasanya berkembang perlahan, yang jika tidak diobati dapat meresorpsi tulang kortikal dan meluas ke jaringan sekitar.²⁷ Ameloblastoma jarang berubah menjadi ganas atau jika metastasis, massa bisa menyebabkan deformitas pada wajah dan rahang.

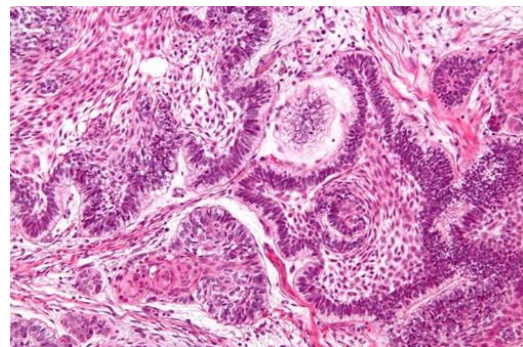
Seperti KCOT, adanya gigi yang tidak erupsi sering dihubungkan dengan ameloblastoma. Tanda klinis yang pertama muncul berupa pembengkakan yang tidak sakit, deformitas wajah, terasa nyeri bila pembengkakan mengenai struktur lain, gigi terlepas secara spontan, ulkus di intraoral, dan penyakit periodontal.²⁷ Pola pertumbuhan dari ameloblastoma adalah mendestruksi semua tulang, baik yang ke arah anteroposterior ataupun lateral; arah lateral lebih cepat terjadi bila dibandingkan arah anteroposterior.²⁸ Ameloblastoma paling sering ditemukan pada aspek posterior dan sudut mandibula, namun bisa terjadi di mana saja baik pada maksila maupun mandibula. Secara radiografi, ameloblastoma adalah lesi radiolusen dengan densitas hampir serupa dengan KCOT, yaitu berkisar 30 unit Hounsfield, namun ameloblastoma menunjukkan lebih banyak perluasan tulang dan jarang menunjukkan kepadatan tinggi.²⁸ Kekambuhan sering terjadi, meskipun tingkat kekambuhan untuk reseksi lebih rendah daripada terapi enukleasi dan kuretase.²⁹ Ameloblastoma unicystic lebih sering kambuh bila dibandingkan dengan yang non-unicystic dan 50% dari semua kekambuhan terjadi dalam 5 tahun pasca operasi.²⁷⁻²⁹ Kekambuhan biasa berasal dari jaringan lunak, terutama periosteum yang berdekatan dan umumnya terjadi setelah pengobatan. Kekambuhan telah dilaporkan terjadi sebanyak 36 tahun setelah pengobatan.³⁰⁻³¹ Pembagian ameloblastoma menurut ciri dan tampilannya adalah tipe solid/multikistik, ekstraoseus/perifer, dan desmoplastik atau unicystic. Ameloblastoma tipe unicystic menyumbang 5-15% dari semua kasus, seperti dalam kasus ini. Usia rata-rata penyajian untuk kasus yang berhubungan dengan gigi yang tidak erupsi adalah 16 tahun.³⁰

Pada studi kasus ini diaporkan tentang kasus KCOT yang simultan dengan ameloblastoma pada mandibula pasien. Diagnosis yang disimpulkan dari pencitraan sebagai ameloblastoma, tetapi diragukan

setelah dilakukan pemeriksaan histologi karena di dalam lesi terkandung bercak keratin yang hanya terdapat pada lesi KCOT, di samping terdapat sel palidase yang merupakan ciri dari ameloblastoma.



Gambar 6 Terlihat lapisan KCOT dengan permukaan keratin yang menonjol, antarmuka jaringan ikat epitel datar, lapisan epitel kerucut hiperkeratirik, puing keratinase dan protein.²⁰



Gambar 7 Tampak puing ameloblastoma dengan ciri pulau berinti sel palisaded yang memiliki polarisasi terbalik. Terbalik karena nuklei pada inti jauh dari nukleus di kutub yang berlawanan dengan membran dasar. Palisaded nuclei artinya terlihat tampilan menyerupai pagar palsu. Inti berbentuk kolumnar dengan sumbu panjang tegak lurus terhadap membran dasar vakuolisasi subnuklear pada vakuola sel palisading pada aspek membran basal.²⁶

Secara radiografi keduanya merupakan lesi radiolusen, lokasi di mandibula, serta merupakan lesi dengan kekambuhan.^{31,32} Secara radiologis, KCOT muncul sebagai radiolusen yang tidak beraturan, uni atau multilokuler, yang umumnya memiliki lapisan sklerotik tipis, reaktif, dan tepi halus atau bergigi dan merusak dan menyerang ke tulang yang berdekatan.³³ Sebaliknya, ameloblastoma berjalan secara perlahan, massa tumor padat atau dan kistik, bentuk lesi dapat uni atau multilokuler yang berupa gambaran spesifik menyerupai sarang lebah, *bubble soap*, *spider*.³⁴ Dalam panoramik kasus ini, tampak sebagai lesi radiolusen, unilokuler tanpa resorpsi akar, lesi kistik destruktif yaitu seluruh tulang kortikal pada TMJ dan ramus mandibula telah teresorpsi. Secara fisik lesi ini lebih mirip sifat ameloblastoma unikistik bila dibandingkan dengan KCOT. Akan tetapi bila mengacu pada kasus terdahulu dan hasil pemeriksaan lain maka salah satu dugaan adalah KCOT. Pemeriksaan radiografi bukan

karakteristik khas yang dapat membedakan kedua jenis tumor odontogenik ini.³⁴

Disimpulkan bahwa lesi pada kasus merupakan lesi ameloblastoma dengan karakteristik KCOT masih tergambar di dalam jaringan. Hal ini dimungkinkan

sebab pasien pernah menjalani marsupialisasi KCOT sehingga terbentuk pencampuran jaringan. Unicystic ameloblastoma dan KCOT secara spesifik tidak dapat dibedakan hanya dengan pemeriksaan radiografi, tapi juga dengan pemeriksaan histopatologi.

DAFTAR PUSTAKA

1. Eryilmaz T, Ozmen S, Findikcioglu K, Kandal S, Aral M. Odontogenic keratocyst: an unusual location and review of the literature. *Ann Plast Surg* 2009; 62(2):210-2.
2. Odontogenic keratocyst. Sciubba JJ, Fantasia JE, Kahn LB, eds. *Atlas of tumor pathology: tumors and cysts of the jaw*. 3rd ed. Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1999. p.34-40.
3. Crowley TE, Kaugars GE, Gunsolley JC. Odontogenic keratocysts: a clinical and histologic comparison of the parakeratin and orthokeratin variants. *J Oral Maxillofac Surg* 1992; 50(1):22-6.
4. Bakaeen G, Rajab LD, Sawair FA, Hamdan MA, Dallal ND. Nevroid basal cell carcinoma syndrome: a review of the literature and a report of a case. *Int J Paediatr Dent* 2004; 14(4):279-87.
5. Brazis PW, Miller NR, Lee AG, Holliday MJ. Neuro-ophthalmologic aspects of ameloblastoma. *Skull Base Surg* 1995; 5 (4): 233-44.
6. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995; 31B (2): 86-99.
7. Madhup R, Kirti S, Bhatt M, Srivastava M, Sudhir S, Srivastava. Giant ameloblastoma of jaw successfully treated by radiotherapy. *Oral Oncol Extra* 2006; 42 (1): 22-5.
8. Gardner DG. A pathologist's approach to the treatment of ameloblastoma. *J Oral Maxillofac Surg* 1984; 42 (3): 161-6.
9. Data base radiografi. Rumah Sakit Gigi dan Mulut, Fakultas Kedokteran Gigi, Universitas Padjadjaran, Bandung; 2016
10. Arijji Y, Morita M, Katsumata A, Sugita Y. Imaging features contributing to the diagnosis of ameloblastomas and keratocystic odontogenic tumours: logistic regression analysis. *Dentomaxillofac Radiol J* 2011: 133-40
11. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. *Pathology and genetics of head and neck tumours*. Lyon: IARC Press; 2005
12. Yoshiura K, Higuchi Y, Arijji Y, Shinohara M, Yuasa K, Nakayama E, et al. Increased attenuation in odontogenic keratocysts with computed tomography: a new finding. *Dentomaxillofac Radiol* 1994; 23:138-42.
13. Carlson ER, Marx RE. The ameloblastoma: primary, curative surgical management. *J Oral Maxillofac Surg* 2006; 64: 484-94.
14. Maurette PE, Jorge J, de Moraes M. Conservative treatment protocol of odontogenic keratocyst: a preliminary study. *J Oral Maxillofac Surg* 2006; 64: 379-83.
15. Chi AC, Owings JR Jr, Muller S. Peripheral odontogenic keratocyst: report of two cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005; 99(1):71-8.
16. Ide F, Mishima K, Saito I, Kusama K. Rare peripheral odontogenic tumors: report of 5 cases and comprehensive review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008; 106(4):e22-8.
17. Toller P. Origin and growth of cysts of the jaws. *Ann R Coll Surg Engl* 1967; 40(5):306-36.
18. Philipsen HP. Keratocystic odontogenic tumor. Barnes L, Eveson JW, Reichart PA, Sidransky D, eds. *World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics head and neck tumours*. Lyon: IARC Press; 2005. p.306-7.
19. Madras J, Lapointe H. Keratocystic odontogenic tumour: reclassification of the odontogenic keratocyst from cyst to tumour. *J Can Dent Assoc* 2008; 74(2):165-5h.
20. Gonzalez-Alva P, Tanaka A, Oku Y. Keratocystic odontogenic tumor: a retrospective study of 183 cases. *J Oral Sci* 2008; 50(2):205-12.
21. Cavalcante RB, Pereira KM, Nonaka CF, Nogueira RL, de Souza LB. Immunohistochemical expression of MMPs 1, 7, and 26 in syndrome and nonsyndrome odontogenic keratocysts. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2008; 106(1):99-105.
22. Hyun HK, Hong SD, Kim JW. Recurrent keratocystic odontogenic tumor in the mandible: a case report and literature review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009; 108(2):e7-10.

23. Philipsen HP. Keratocystic odontogenic tumor. Barnes L, Eveson JW, Reichart PA, Sidransky D, eds. World Health Organization classification of tumours: pathology and genetics head and neck tumours. Lyon: IARC Press; 2005. p.306-7.
24. Brazis PW, Miller NR, Lee AG, Holliday MJ. Neuro-ophthalmologic aspects of ameloblastoma. *Skull Base Surg* 1995; **5** (4): 233–44.
25. Reichart PA, Philipsen HP, Sonner S. Ameloblastoma: biological profile of 3677 cases. *Eur J Cancer B Oral Oncol* 1995; **31B** (2): 86–99
26. Madhup R, Kirti S, Bhatt, M Srivastava. M Sudhir, S Srivastava. A Giant ameloblastoma of jaw successfully treated by radiotherapy. *Oral Oncol Extra* 2006; **42** (1): 22–5.
27. Arijji Y, Morita M, Katsumata A, Sugita Y, Naitoh. Imaging features contributing to the diagnosis of ameloblastomas and keratocystic odontogenic tumours: logistic regression analysis. *Dentomaxillofac Radiol* 2011; **40** (3): 133–40.
28. Vasan, NT. Recurrent ameloblastoma in an autogenous bone graft after 28 years: a case report. *N Z Dent J* 2006; **91** (403): 3-12
29. Choi YS, Asaumi J, Yanagi Y, Hisatomi M, Konouchi H, Kishi K. Recurrence of an ameloblastoma in an autogenous iliac bone graft. *Dentomaxillofac Radiol* 2006; **35** (1): 43–6.
30. Martins WD, Fávoro DM. Recurrence of an ameloblastoma in an autogenous iliac bone graft. *Oral Surg, Oral Med, Oral Pathol, Oral Radiol, Endodontol* 2006; **98** (6): 657–9.
31. Zachariades N. Recurrences of ameloblastoma in bone grafts. Report of 4 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1988; **17** (5): 316–8
32. Synchronous ameloblastoma and orthokeratinized odontogenic cyst of the mandible. *J Oral Pathol Med* 2006; **35**: 573-5
33. Shear M, Speight PM (eds). Odontogenic keratocyst. In: *Cysts of the oral and maxillofacial regions*. 4th Ed. Oxford: Blackwell Munksgaard; 2007.p.6-58
34. Som PM, Curtin HD. Tumors and tumor-like conditions. In: *Head and neck imaging*. Som PM, Brandwein MS (eds). 4th Ed. St. Louis; Mosby; 2004. p.347-52, 354-6