







ARTIGO ORIGINAL

Características clínicas e demográficas de tumores odontogênicos adenomatoides: análise de 116 novos casos em um único centro[☆]

Bogahawatte Samarakoon Mudiyansele Samadarani Siriwardena ^{a,*},
Muthuranwelli Nawaragoda Gedara Pushpakumara Udagama ^b,
Tennakoon Mudiyansele Priyanka Bandara Tennakoon ^a,
Demin Achchi Athukoralalage Dona Wimukthi Athukorala ^c,
Primali Rukmal Jayasooriya ^a e Wanninayake Mudiyansele Tilakaratne ^{a,d}

^a University of Peradeniya, Faculty of Dental Sciences, Kandy, Sri Lanka

^b Ministry of Health, Kandy, Sri Lanka

^c University of Peradeniya, Faculty of Allied Health Sciences, Sri Lanka

^d University of Malaya, Faculty of Dentistry, Department of Oral and Maxillofacial Clinical Sciences, Malaya, Malásia

Recebido em 27 de março de 2020; aceito em 10 de junho de 2020

PALAVRAS-CHAVE

Tumores
odontogênicos
adenomatoides;
TOA;
Frequência relativa;
Tumores
odontogênicos;
Demografia

Resumo

Introdução: O tumor odontogênico adenomatoide é uma neoplasia odontogênica relativamente incomum que representa cerca de 4,7% de todos os tumores odontogênicos.

Objetivo: Determinar o perfil demográfico e clínico dos tumores odontogênicos adenomatoides em uma população do Sri Lanka.

Método: Os dados foram obtidos dos casos tratados por 38 anos no Departamento de Patologia Oral da *Faculty of Dental Sciences, University of Peradeniya*. Formulários de solicitação, relatórios de biópsia e o banco de dados eletrônico do departamento foram usados para obter informações relevantes. Dados demográficos, idade, sexo e localização do tumor foram incluídos na análise.

Resultados: Dos 116 casos de tumor odontogênico adenomatoide, a média de idade foi de $21,02 \pm 11,24$. Ocorreu com mais frequência na segunda década de vida, e foi mais prevalente no sexo feminino, mais frequentemente associado à maxila, afetou predominantemente os ossos da mandíbula anterior e apresentou-se principalmente no lado direito dos ossos da mandíbula. Os resultados do presente estudo mostraram uma relação estatisticamente significativa com o local da ocorrência (maxila/mandíbula) e idade ($p < 0,005$). Além disso, de acordo com o local

[☆] Como citar este artigo: Siriwardena BS, Udagama MN, Tennakoon TM, Athukorala DA, Jayasooriya PR, Tilakaratne WM. Clinical and demographic characteristics of adenomatoid odontogenic tumors: analysis of 116 new cases from a single center. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2022;88:309–15.

* Autor para correspondência.

E-mail: samadarani@yahoo.com (B.S. Siriwardena).

A revisão por pares é da responsabilidade da Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial.

de ocorrência, região anterior/média/posterior, também apresentou relação significativa com a idade ($p \leq 0,001$). Entretanto, nem o lado acometido, direito ou esquerdo, ou o sítio de ocorrência foi estatisticamente significante em relação à idade ($p > 0,05$).

Conclusão: O tumor odontogênico adenomatoide ocorre com mais frequência na segunda década de vida, com predominância feminina significativa, e o local mais comum é a maxila anterior. Este estudo revelou poucas diferenças nas apresentações demográficas e clínicas do tumor odontogênico adenomatoide de algumas regiões do mundo.

© 2020 Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial. Publicado por Elsevier Editora Ltda. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Introdução

Os tumores odontogênicos (TO) são lesões incomuns que se originam de tecidos epiteliais, ectomesenquimatosos e/ou mesenquimais do sistema que forma os dentes. Constitui um grupo heterogêneo de lesões com diversas características biológicas, clínicas e histopatológicas, que variam de lesões benignas a tumores malignos.^{1,2} A classificação dos tumores odontogênicos é essencialmente baseada nessas interações entre o ectomesênquima e o epitélio odontogênico.³ A literatura indica que os tumores odontogênicos mostram uma variação geográfica em sua distribuição e frequência.³⁻⁷

O tumor odontogênico adenomatoide (TOA) é classificado como tumor odontogênico não epitelial, devido à semelhança histomorfológica com os componentes do órgão dental. O TOA é uma lesão odontogênica benigna (hamartomatosas) que tem sido considerada uma neoplasia não invasiva e não agressiva, com crescimento lento mas progressivo. O TOA é geralmente considerado um tumor incomum.⁸

A busca pelo primeiro caso identificável de TOA é desafiadora, porque muitos nomes já foram usados para essa entidade. Alguns casos iniciais foram agrupados com outros tumores superficialmente semelhantes e isso ficou mais complicado, pois a documentação fotográfica não estava disponível naquela época. O TOA foi descrito pela primeira vez por Dreibaldt em 1907, como um "pseudoadenameloblastoma". Harbitz et al. publicaram uma descrição em 1915 como um "adamantoma cístico".⁹

A primeira série de TOAs foi relatada por Stafne em 1948, sob o título "tumores epiteliais associados a cistos do desenvolvimento da maxila".¹⁰ Bernier e Tiecke publicaram um artigo que foi o primeiro caso a usar o nome "adenoameloblastoma".¹¹

A terminologia usada para o TOA varia de acordo com a literatura. Miles, da Inglaterra, denominou-o como "odontoma composto complexo cístico".¹² Além disso, Oehlers, de Singapura, descreveu-o como "um tumor incomum do tipo pleomórfico semelhante à adenoma na parede de um cisto dentígero",¹³ enquanto Lucus de Londres o descreveu como um "tumor do epitélio do órgão do esmalte" (Lucus, 1957), um autor japonês como um "ameloblastoma adenomatoide"¹⁴ e Smith dos Estados Unidos como "odontoma adenomatoide",¹⁵ que foram as outras nomenclaturas usadas para a mesma entidade. Houve casos de TOA documentados como "adenoameloblastoma", "tumor adenomatoide ameloblástico", "adamantinoma", "epitelioma

adamantinum" e "odontoma teratomatoso". Finalmente, em 1969, Philipsen e Birn propuseram o nome amplamente aceito "tumor odontogênico adenomatoide".¹⁶

Como todos os outros tumores odontogênicos, o estímulo específico que desencadeia a proliferação das células progenitoras do TOA é desconhecido. O TOA é responsável por aproximadamente 3% a 7% dos tumores odontogênicos e é o quarto tumor mais frequente entre os TOs.⁸ A frequência relativa (FR) do TOA no Sri Lanka foi relatada como 8,6% em 1990¹⁷ e 4,7% em outro estudo.¹⁷ Estudos retrospectivos feitos na Tailândia,¹⁸ China,¹⁹ México⁵ e EUA²⁰ revelaram que a frequência relativa do TOA foi de 5,3%, 2,1%, 7,1% e 1,7%, respectivamente.

Dois terços dos TOAs são diagnosticados na segunda década de vida e mais da metade dos casos é encontrada em adolescentes (13 a 19 anos).^{2,17} De Matos et al.,²¹ em uma revisão retrospectiva de 15 casos no Brasil, revelou uma média de idade inferior a 16,2 anos e estudos dos EUA²⁰ e China²² revelaram que a média de idade foi de 20,2 e 22,6 anos, respectivamente.

O tumor é diagnosticado com mais frequência em mulheres e alguns estudos recentes também revelaram uma forte predileção pelo sexo feminino.^{20,23-25} Além disso, outros pesquisadores observaram que o TOA é mais comum em indivíduos negros.²⁶

Embora o local comum do tumor seja a maxila anterior,^{7,27,28} há poucos estudos que mostraram uma leve predileção pelo sítio mandibular.^{29,30} O dente predominantemente associado ao TOA foi o canino maxilar,^{21,27} mas alguns estudos revelaram um raro envolvimento de molares não irrompidos.³¹ Embora o TOA seja um tumor assintomático, os pacientes podem estar cientes de um inchaço gengival indolor ou uma área aumentada da mandíbula que cresce lentamente e é frequentemente associada a um dente não irrompido.³²

A presença de calcificações dá uma aparência radiodensa mista aos TOAs, além da aparência normal da radiolucência unilocular bem demarcada.

Histologicamente, ele é composto de células epiteliais fusiformes que formam folhas, fios ou massas tortuosas (tipo roseta) em um estroma fibroso escasso, rodeado por uma cápsula fibrosa. Os espaços centrais das estruturas do duto são revestidos por uma camada de células epiteliais colunares ou cuboidais que mostra polaridade invertida, sugere atividade secretora. Os focos de calcificações podem ser vistos espalhados por todo o tumor e alguns TOAs contêm áreas maiores de material da matriz ou calcificação, que

têm sido interpretadas como dentinoide ou cimento.²⁶ A excisão cirúrgica completa com enucleação é o tratamento de escolha e a recorrência do TOA é extremamente rara; portanto, poucos casos de recorrência foram relatados.³³

Vários estudos de diferentes lugares do mundo foram feitos para determinar o perfil demográfico e clínico do TOA de acordo com idade, sexo, localização, extensão do tumor e dentes impactados associados. Entretanto, no Sri Lanka não existem estudos relacionados ao TOA em si. O estudo atual é composto por 116 casos de TOA que precisam ser adicionados à literatura. Portanto, o objetivo do presente estudo foi analisar uma das maiores séries de TOA de um único centro, durante 38 anos, e compará-lo com a literatura existente.

Método

Estudo analítico retrospectivo. Os casos diagnosticados como TOA, com suas características demográficas e clínicas (idade, sexo, localização do tumor) de janeiro de 1980 a 31 de dezembro de 2018, foram recuperados dos arquivos do Departamento de Patologia Oral da *Faculty of Dental Sciences, University of Peradeniya*, Sri Lanka. Foram excluídos TOAs com dados inadequados e casos com múltiplas biópsias foram considerados como um único caso. A aprovação ética foi obtida no comitê de ética da *Faculty of Dental Sciences, University of Peradeniya* (ERC/FDS/UOP/1/2018/08). Os detalhes que não estão no banco de dados foram recuperados dos formulários de solicitação dos pacientes, que estão no Departamento de Patologia Oral. Em relação à análise histopatológica, todos os casos foram avaliados por dois patologistas. Os casos com características incomuns foram registrados separadamente.

Os dados coletados foram inseridos em uma planilha do programa Microsoft Excel. Os detalhes coletados foram agrupados de acordo com as categorias de idade para identificar a frequência e o grupo da 2ª década de vida foi analisado separadamente. A distribuição nos ossos da mandíbula também foi avaliada. Os dados foram analisados com o *software* estatístico SPSS 25 (Statistical Package for the Social Sciences, 25). O teste do qui-quadrado foi usado para determinar a associação. Cada variável com combinações diferentes foi analisada para identificar se existia alguma relação significativa. O nível de significância foi estabelecido em ($p < 0,05$) durante todo o estudo.

Resultados

Foram identificados 116 casos de TOA. A idade variou de 5 a 77 anos, com média de 21,02 ($21,02 \pm 11,24$) e mediana de 18. Há uma pequena diferença nas médias de idades entre mulheres e homens ($21,14 \pm 10,91$ anos e $20,82 \pm 11,91$ anos).

Durante a segunda década de vida, a incidência de TOA é de 69,8%, que é a mais alta, seguida pela faixa de 21 a 30 anos. Da amostra total, o pico de incidência de TOA (12,1%) foi encontrado aos 15 anos, seguido por 18 (11,2%) e 16 (9,5%) (fig. 1a). No entanto, entre os 11 e 20 anos, 17,3% tinham 15 anos e 16% tinham 18 anos, seguidos por 13,6% deles com 16 (fig. 1b).

Foram incluídos 44 (37,9%) homens e 72 (62,1%) mulheres. A proporção homem: mulher para todas as faixas etárias foi de 1:1,6. Houve uma leve predileção pelo sexo feminino.

A maxila foi o local mais afetado pelo TOA, compreendeu 78 casos (67,2%), enquanto 38 (32,8%) casos foram relatados na mandíbula, resultou em uma relação maxila/mandíbula de 2,1:1. Dos 116 casos, a localização precisa foi identificada em 111. A região anterior de ambas as mandíbulas foi a mais afetada (81,1%), seguida pela região média (18,0%) e houve um caso (0,9%) na região posterior. Ao todo, 113 casos tinham informações sobre a lateralidade do tumor. O lado direito foi o mais afetado, com 60 casos, (53,1%) quando comparado ao esquerdo, com 53 (46,9%), resultou em uma proporção de 1,1:1 para os lados direito: esquerdo (fig. 2). Houve dois casos (1,8%) na região anterior sem informação do local exato. Portanto, eles não foram incluídos na figura 2.

A maxila foi o sítio de predileção na primeira, segunda e terceira décadas de vida (relação maxila:mandíbula 2:1, 3,5:1 e 1,3:1, respectivamente). No entanto, nos achados da faixa de 30 anos e acima, a mandíbula foi a mais frequentemente afetada. A razão maxila:mandíbula para a faixa de 31 a 40 anos foi de 1:1,75; na faixa de 41 a 50 foi de 1:3; para > 50 anos, todos os três casos estavam na mandíbula.

A mandíbula anterior foi também frequentemente afetada. As proporções para as faixas de 50 anos ou acima foram anterior:média:posterior de 3:0:0; 10,3:1:0; 2:1:0 e 2:0:1, respectivamente.

De acordo com a análise da distribuição por gênero e predileção de lado (esquerdo/direito), os resultados indicam que a proporção do lado esquerdo da mandíbula para o sexo masculino:feminino foi 1:1,1 e o lado direito do osso da mandíbula era 1:2,3. A distribuição dos casos entre os lados esquerdo e direito do maxilar é analisada ainda mais de acordo com as décadas de vida. Ela mostra que o lado direito é o local de predileção na primeira, segunda, terceira e quarta décadas de vida (proporção esquerda:direita 1:2,1:1,2,1:4 e 1:1,5, respectivamente). Entretanto, na quinta década de vida, ela apresenta igual prevalência nos lados esquerdo e direito dos ossos da mandíbula. Nos pacientes com mais de 50 anos, o lado direito parece ser o local mais frequentemente afetado. A proporção esquerda:direita para a faixa > 50 anos foi de 2:1 (tabela 1).

Houve uma relação estatisticamente significativa entre o local de ocorrência (maxila/mandíbula) e a idade ($p < 0,005$). Além disso, a depender do local de ocorrência, nas regiões anterior/média/posterior, também houve uma relação significativa com a idade ($p \leq 0,001$). Entretanto, a relação do lado da ocorrência (esquerda/direita) em relação à idade, assim como entre e o local da ocorrência e o sexo, não mostrou uma relação estatisticamente significativa.

A maioria dos casos mostrou aspectos característicos dos TOAs (fig. 3a), um caso apresentou-se como uma grande lesão mandibular. Alguns casos mostraram calcificações acentuadas, enquanto outros mostraram material eosinofílico homogêneo (fig. 3b-c).

Discussão

O tumor odontogênico adenomatoide é uma lesão odontogênica benigna que tem sido classificada como uma

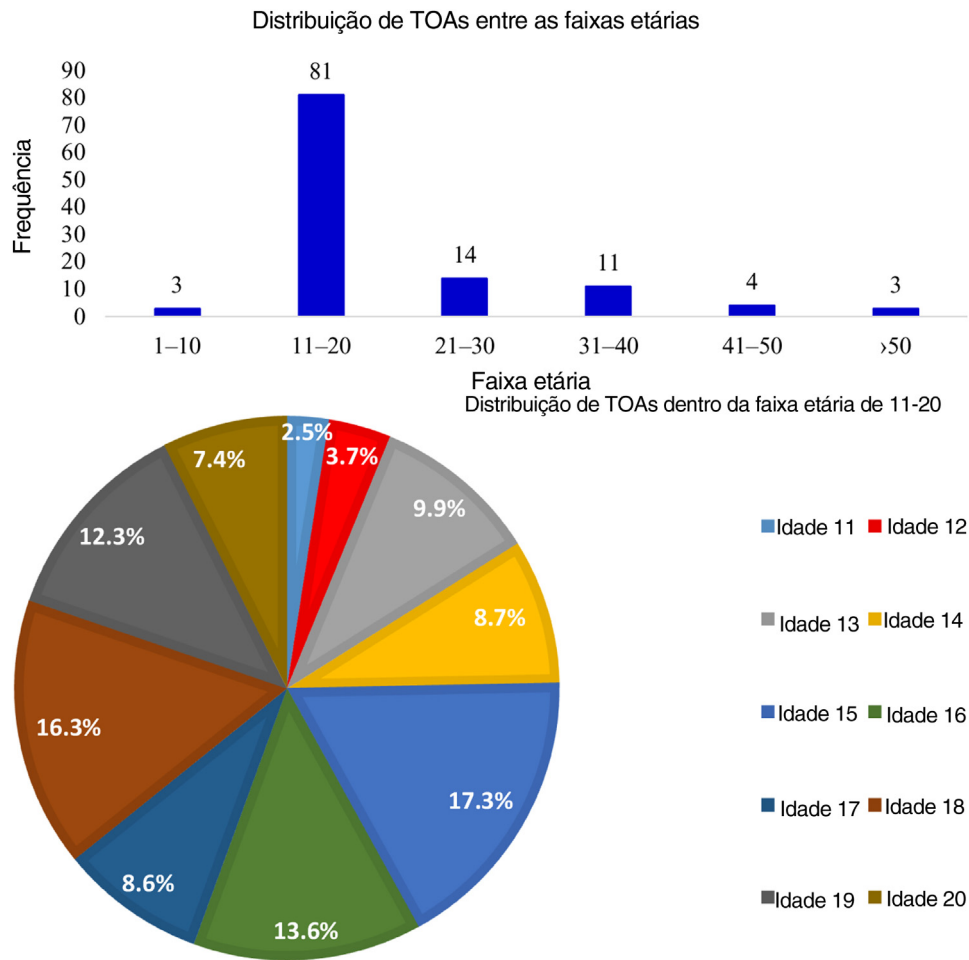


Figura 1 (a) Distribuição de TOAs entre as faixas etárias. (b) Distribuição de casos na faixa de 11 a 20 anos.

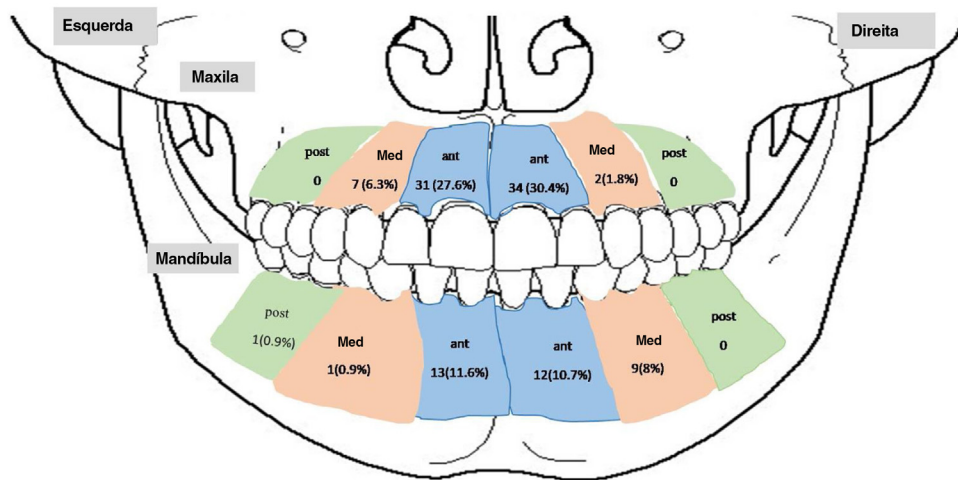


Figura 2 Distribuição de casos de TOAs nos ossos da mandíbula. E, esquerda; D, direita; Ant. Anterior; Med., Média; Post. posterior; M, mandíbula; X, Maxila.

neoplasia não invasiva e não agressiva ou como uma lesão hamartomatosa do desenvolvimento.^{26,34} Vários estudos de diferentes lugares do mundo foram feitos para determinar o perfil demográfico e clínico do TOA. De acordo com estudos anteriores, a apresentação demográfica e clínica dos TOAs

não difere significativamente de um país para outro.^{2,17} Entretanto, no Sri Lanka não há informações atualizadas disponíveis sobre o perfil demográfico e clínico do TOA. Portanto, este estudo foi feito para analisar as características demográficas e o perfil clínico dos TOAs no Sri Lanka.

Tabela 1 Distribuição dos TOAs nas mandíbulas em relação ao sexo e faixa etária

	Maxila	Mandíbula	Total	
Masculino	32	12	44	
Feminino	46	26	72	
1–10 anos	2	1	3	
11–20 anos	63	18	81	
21–30 anos	8	6	14	
31–40 anos	4	7	11	
41–50 anos	1	3	4	
> 50 anos	0	3	3	

	Mandíbula anterior	Mandíbula média	Mandíbula posterior	Total
Masculino	36	5	1	42
Feminino	54	15	0	69
1–10 anos	3	0	0	3
11–20 anos	72	7	0	79
21–30 anos	8	4	0	12
31–40 anos	4	6	0	10
41–50 anos	1	3	0	4
> 50 anos	2	0	1	3

	Esquerdo	Direito	Total
Masculino	25	18	43
Feminino	28	42	70
1–10 anos	1	2	3
11–20 anos	39	42	81
21–30 anos	5	7	12

O tumor odontogênico adenomatoide não é um TO comum. Portanto, temos apenas 116 casos registrados no Departamento de Patologia Oral da *Faculty of Dental Sciences, University of Peradeniya* nos últimos 38 anos. No entanto, esta é a maior amostra de uma única instituição até agora na literatura. O resultado do nosso estudo é equivalente à maioria dos estudos em todo o mundo.

Tem sido geralmente aceito que a frequência relativa do TOA corresponde a 2,2% a 8,7% de todos os tumores odontogênicos.^{8,31} Entretanto, em um estudo retrospectivo colaborativo em todo o mundo, a frequência relativa de TOA variou de 0,6% a 38,5%.³⁴ A frequência relativa de TOA no Sri Lanka foi de 8,6% em 1990.¹⁷ Entretanto, estudos mais recentes do Sri Lanka relataram uma frequência relativa mais baixa, que foi de 4,7% de todos os TOs.² De maneira similar, alguns relatos da China sugeriram uma frequência relativa mais alta (8,3%) de TOA,²² embora uma revisão retrospectiva recente de 1.309 casos da China tenha revelado uma frequência relativa mais baixa, de 2,1%.¹⁹ Em comparação com os países asiáticos, nossa frequência relativa foi menor do que a relatada em países como a Tailândia (5,3%).¹⁸ Estudos da Malásia (0,3%) China (2,1%)^{19,29} EUA,²⁰ Nigéria,²⁵ Brasil²¹ e México⁵ encontraram uma ocorrência relativa de TOA entre o total de TOs de 0,3%, 2,1%, 1,7%, 4,5%, 5,4% e 7,1%, respectivamente.

Semelhantemente ao presente estudo, estudos retrospectivos com grandes séries de casos revelaram uma predominância feminina para TOA, com uma proporção global de mulheres para homens de 1,9:1.^{8,34} Entretanto, a proporção de mulheres para homens de 1,6:1 obtida neste

estudo não refletiu a acentuada preponderância feminina em estudos anteriores feitos na Ásia. Um estudo recente do Sri Lanka revelou uma proporção de mulheres para homens de 2:1.² Toida et al.³⁵ no Japão relataram uma proporção de mulheres para homens de 3:1. Em contraste, Swadison et al.,¹⁸ em uma revisão retrospectiva de 67 casos na população tailandesa, mostraram uma proporção mulheres:homens de 1,8:1, o que foi bastante semelhante aos nossos achados. Além disso, Arotiba et al.,²⁷ em um estudo anterior feito na Nigéria, e De Matos et al.,²¹ em uma revisão de 15 casos no Brasil, mostraram uma proporção mulheres:homens de 1,4:1, o que estava mais de acordo com nossos achados.

Com relação à distribuição etária, foi relatado que mais de dois terços dos TOAs são diagnosticados em pacientes jovens, especialmente na segunda década de vida, e mais de 80% são encontrados antes dos 30 anos.^{8,27,34} Os achados de nosso estudo estão de acordo com esses relatos.

A média de idade dos pacientes no momento do diagnóstico foi de 21,02 anos. A média da idade foi de 21,14 anos para as mulheres e 20,82 anos para os homens no presente estudo. Nossos estudos anteriores mostraram uma média de idade menor, provavelmente devido ao menor número de casos em comparação com o presente estudo (17,6 e 18 anos, respectivamente).^{2,17}

Entretanto, Swadison et al.,¹⁸ em uma revisão retrospectiva de 67 casos da Tailândia, indicaram 21,1 anos como a média de idade; 21,4 para homens e 20,9 para mulheres. Os resultados atuais são mais análogos aos deste estudo. A média de idade dos estudos de Adisa et al.²⁵

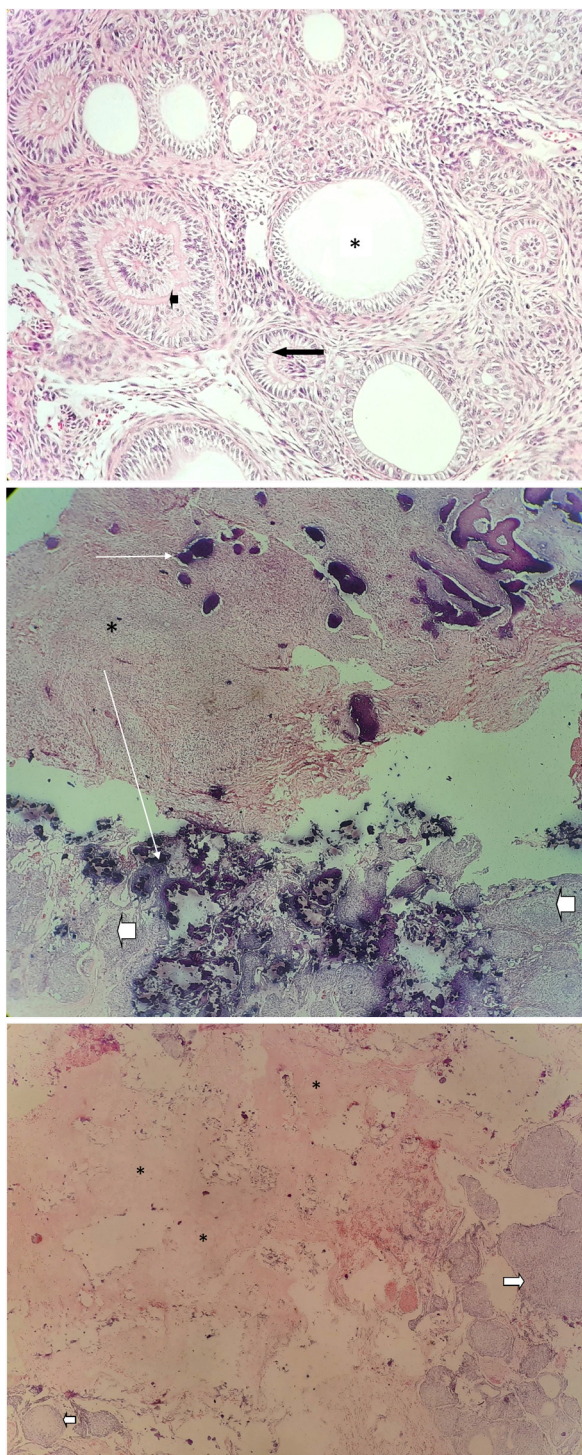


Figura 3 (a) Aparência histológica do TOA. (b) TOA com numerosas calcificações. (c) TOA com material eosinofílico que imita a dentina (ponta de seta), com maior ampliação.

da Nigéria e Lu et al.²² da China foi de 20,4 anos e 22,6 anos, respectivamente. Além disso, um estudo composto por 1.088 casos de TOs do norte da Califórnia relatou 20,2 anos como a média de idade.²⁰ Os resultados dos estudos acima foram mais condizentes com os do presente estudo. Além disso, Ochsenius et al.,⁷ em uma revisão retrospectiva do Chile, revelou uma média de idade semelhante

(21,03 anos) em comparação com os achados do estudo atual. Leon et al.,³⁶ em um estudo clínico-patológico e imuno-histoquímico de 39 casos de TOA de três serviços de diagnóstico oral (Brasil, México e Guatemala), e Matos et al.,²¹ em uma revisão retrospectiva de 15 casos no Brasil, apresentaram menores médias de idade, de 16 e 16,2 anos, respectivamente. Arotiba et al.,²⁷ em uma revisão retrospectiva de 57 casos na população negra africana, relatou uma média de idade de 17 anos. No entanto, os achados do estudo atual não foram compatíveis com esses dados.

O TOA ocorre predominantemente na maxila (67,2%) em comparação à mandíbula (32,8%), com razão maxila/mandíbula de 2,1:1 (com uma proporção mulher/homem de 1,4:1 para maxila e 2,1:1 para mandíbula), e a parte anterior da mandíbula (81,1%) foi muito mais afetada do que as regiões média (18,0%) e posterior da mandíbula (0,9%). Além disso, o lado direito (53,1%) foi levemente mais afetado em comparação com o lado esquerdo (46,9%). A proporção maxila/mandíbula do TOA no Sri Lanka foi relatado anteriormente como de 2,3:1, o que está de acordo com os achados do estudo atual.² Estudos semelhantes feitos em todo o mundo revelaram uma predileção maxilar, com razões maxila/mandíbula de 1,25:1 (25), 1,8:1 (36), 1,9:1 (18) e 2:1.³¹ A predileção pela região anterior da mandíbula foi revelada em alguns estudos.^{18,25} Além disso, uma revisão retrospectiva de 15 casos no Brasil e um estudo semelhante no Chile também revelaram uma predileção pela mandíbula anterior.^{7,21} Os resultados do estudo atual estão mais de acordo com esses estudos.

Embora estudos retrospectivos da Malásia e do Brasil mostrem uma leve predileção mandibular,^{29,30} nossos resultados e a maioria dos outros estudos contradizem os achados acima. Alguns estudos mais antigos da Nigéria sugeriram uma predileção mandibular por TOA.³⁷ No entanto, estudos mais recentes da Nigéria por Arotiba et al.²⁷ e Effiom et al.²⁸ concordam com uma preponderância maxilar anterior.

Conclusão

Os resultados do presente estudo mostraram que o TOA ocorre com mais frequência na segunda década de vida, é mais prevalente no sexo feminino, mais frequentemente associado à maxila, afeta predominantemente os ossos da mandíbula anterior e apresenta-se principalmente no lado direito do osso da mandíbula. Os resultados do presente estudo mostraram uma relação estatisticamente significativa com o local da ocorrência (maxila/mandíbula) e idade ($p < 0,005$). Além disso, a depender se ele ocorre na região anterior/média/posterior, mostrou uma relação significativa com a idade ($p \leq 0,001$). Entretanto, o lado (esquerdo/direito), assim como o local da ocorrência, não mostrou relação estatisticamente significativa em relação à idade ($p > 0,05$). Além disso, este estudo revelou algumas diferenças nos dados demográficos e apresentação clínica do TOA de região para região.

Declaração de disponibilidade de dados

Os dados usados para análise podem ser produzidos sempre que solicitado. Dados brutos também podem ser fornecidos mediante solicitação.

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referências

1. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg PJ. WHO Classification of Head and Neck Tumors. 4th Edition. France: IARC publications; 2017.
2. Siriwardena BS, Tennakoon TM, Tilakaratne WM. Relative frequency of odontogenic tumors in Sri Lanka: Analysis of 1677 cases. *Pathol Res Pract*. 2012;208:225–30.
3. Ladeinde AL, Ajayi OF, Ogunlewe MO, Adeyemo WL, Arotiba GT, Bamgbose BO, et al. Odontogenic tumors: A review of 319 cases in a Nigerian teaching hospital. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2005;99:191–5.
4. Odukoya O. Odontogenic tumors: analysis of 289 Nigerian cases. *J Oral Pathol Med*. 1995;24:454–7.
5. Mosqueda-Taylor A, Ledesma-Montes C, Caballero-Sandoval S, Portilla-Robertson J, Ruiz-Godoy Rivera LM, Meneses-García A. Odontogenic tumors in Mexico: a collaborative retrospective study of 349 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1997;84:672–5.
6. Lu Y, Xuan M, Takata T, Wang C, He Z, Zhou Z, et al. Odontogenic tumors. A demographic study of 759 cases in a Chinese population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1998;86:707–14.
7. Ochsenius G, Ortega A, Godoy L, Penafiel C, Escobar E. Odontogenic tumors in Chile: a study of 362 cases. *J Oral Pathol Med*. 2002;31:415–20.
8. Philipsen HP, Reichart PA. Adenomatoid odontogenic tumour: facts and figures. *Oral Oncol*. 1999;35:125–31.
9. Harbitz F. On cystic tumors of the maxilla, and specially on adamantine cystadenomas (adamantomas). *Dent Cosmos*. 1915;57:1081–93.
10. Stafne EC. Epithelial tumors associated with developmental cysts of the maxilla. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1948;1:887–94.
11. Bernier JL, Tiecke RW. Adeno-ameloblastoma. *J Oral Surg (Chic)*. 1950;8:259–61.
12. Miles AE. A Cystic Complex Composite Odontome. *Proc R Soc Med*. 1951;44:51–5.
13. Oehlers FA. An unusual pleomorphic adenoma-like tumor in the wall of a dentigerous cyst. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1956;9:411–7.
14. Ishikawa G, Mori K. A Histopathological Study on the Adenomatoid Ameloblastoma Report of Four Cases. *Acta Odontol Scand*. 1962;20:419–32.
15. Smith JF. The controversial ameloblastoma. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1968;26:45–75.
16. Philipsen HP, Birn H. The adenomatoid odontogenic tumors. Ameloblastic adenomatoid tumor or adeno-ameloblastoma. *Acta pathol Microbiol Scand*. 1969;75:375–98.
17. Mendis BR, MacDonald DG. Adenomatoid odontogenic tumour. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 1990;19:141–3.
18. Swasdison S, Dhanuthai K, Jainkittivong A, Philipsen HP. Adenomatoid odontogenic tumors: an analysis of 67 cases in a Thai population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2008;105:210–5.
19. Luo HY, Li TJ. Odontogenic tumors: A study of 1309 cases in a Chinese population. *Oral Oncol*. 2009;45:706–11.
20. Buchner A, Merrell PW, Carpenter WM. Relative frequency of peripheral odontogenic tumors: a study of 45 new cases and comparison with studies from the literature. *J Oral Pathol Med*. 2006;35:385–91.
21. de Matos FR, Nonaka CF, Pinto LP, de Souza LB, de Almeida Freits R. Adenomatoid odontogenic tumor: retrospective study of 15 cases with emphasis on histopathologic cases. *Head neck pathol*. 2012;6:430–7.
22. Lu Y, Xuan M, Takata T, Wang C, He Z, Zhou Z, et al. Odontogenic tumors; a demographic study of 759 cases in a Chinese population. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1998;86:707–14.
23. Dhanuthai K. Odontogenic Tumours in Thailand. *Asian J Oral Maxillofac Surg*. 2004;16:166–71.
24. Ladeinde AL, Ajayi OF, Ogunlewe MO, Adeyemo WL, Arotiba GT, Bamgbose BO, et al. Odontogenic tumors: a review of 319 cases in a Nigerian teaching hospital. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 2005;99:191–5.
25. Adisa AO, Lawal AO, Effiom OA, Soyele OO, Omitola OG, Olawuyi A, et al. A retrospective review of 61 cases of adenomatoid odontogenic tumors seen in five tertiary health facilities in Nigeria. *Pan Afr Med J*. 2016;24:1–3.
26. Rick GM. Adenomatoid odontogenic tumor. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2004;16:333–54.
27. Arotiba GT, Arotiba JT, Olaitan AA, Ajayi OF. The Adenomatoid Odontogenic Tumor: an analysis of 57 cases in black African population. *J Oral Maxillofac Surg*. 1997;55:146–8.
28. Effiom OA, Odukoya O. Adenomatoid odontogenic tumour: a clinico-pathological analysis and melanin pigmentation study of 31 Nigerian cases. *Niger Postgrad Med J*. 2005;12:131–5.
29. Siar CH, Ng KH. The combined epithelial odontogenic tumor Malaysians. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 1991;29:106–9.
30. Fernandes AM, Duarte ECB, Pimenta FJGS, Souza LN, Santos VR, Mesquita RA, et al. Odontogenic tumors: a study of 340 cases in a Brazilian population. *J Oral Pathol Med*. 2005;34:583–7.
31. Philipsen HP, Reichart PA, Zhang KH, Nikai H, Yu QX. Adenomatoid odontogenic tumors: biologic profile based on 499 cases. *J Oral Pathol Med*. 1991;20:149–58.
32. Buchner A, Sciubba JJ. Peripheral epithelial odontogenic tumors: a review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*. 1987;63:688–97.
33. Philipsen HP, Reichart PA, Nikai H. The adenomatoid odontogenic tumor (AOT): An update. *J Oral Med Pathol*. 1997;2:55–60.
34. Philipsen HP, Reichart PA, Siar C, Ng K, Lau S, Zhang X. An updated clinical and epidemiological profile of the adenomatoid odontogenic tumour: a collaborative retrospective study. *J Oral Pathol Med*. 2007;36:383–93.
35. Toida M, Ishimaru J, Tatematsu N. Calcifying odontogenic cyst associated with compound odontoma: report of a case. *J Oral Maxillofac Surg*. 1990;48:77–81.
36. Leon JE, Mata GM, Fregnani ER, Carlos-Bregni R, de Almeida OP, Mosqueda -Taylor A, et al. Clinicopathological and immunohistochemical study of 39 cases of adenomatoid odontogenic tumors: a multicentric study. *Oral Oncol*. 2005;41:835–42.
37. Ajagbe HA, Daramola JO, Junaid TA, Ajagbe AO. Adenomatoid odontogenic tumor in a black African population: report of thirteen cases. *J Oral maxillofac Surg*. 1985;43:683–7.