

Fibroma Ossificante Central em maxila: relato de caso raro
Central Ossifying Fibroma in the maxilla: a rare case report
Fibroma Osificante Central en el maxilar: um informe de caso raro

Recebido: 23/06/2020 | Revisado: 23/06/2020 | Aceito: 24/06/2020 | Publicado: 06/07/2020

Carlson Batista Leal

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2906-1715>

Universidade Federal da Paraíba, Brasil

E-mail: carlson_leal@hotmail.com

Danilo de Moraes Castanha

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-9199-8018>

Universidade Federal da Paraíba, Brasil

E-mail: danilo.castanha@hotmail.com

Davi Felipe Neves Costa

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-3458-9696>

Hospital Universitário Lauro Wanderley, Brasil

E-mail: davifelipe@gmail.com

Sirius Dan Inaoka

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-9777-347X>

Hospital Universitário Lauro Wanderley, Brasil

E-mail: daninaoka@hotmail.com

Ítalo de Lima Farias

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4019-0884>

Universidade Federal da Paraíba, Brasil

E-mail: italolimaf@hotmail.com

Natália Lins de Souza Villarim

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8424-383X>

Universidade Federal da Paraíba, Brasil

E-mail: natalialins@hotmail.com

Resumo

O fibroma ossificante central é um tumor fibro-ósseo de crescimento lento bem circunscrito, raro, benigno e agressivo. Tal lesão também é conhecida por aumentar de forma expansiva e é

caracterizada pela substituição de osso por um tecido celular fibroso contendo focos de mineralização. Essa lesão geralmente ocorre no terceiro ou quarta décadas de vida com uma predileção feminina. Afeta a mandíbula em 70% a 80% dos casos. O tratamento compreende enucleação e curetagem ou ressecção cirúrgica para lesões maiores. Assim, o objetivo deste artigo é apresentar e avaliar as características de um caso clínico de um paciente com Fibroma Ossificante Central em maxila. Foi descrito um caso de uma paciente do sexo feminino, 34 anos de idade, HIV positivo, cuja queixa era de aumento de volume indolor em rosto há meses após exodontia do dente 12, resultando em dificuldades de se alimentar durante a mastigação. O exame físico evidenciou-se uma edema difuso intra e extra-oral em região anterior de maxila direita, endurecido à palpação, que foi submetida a enucleação mais curetagem cirúrgica. Foi feita uma biópsia incisional e levado material para análise no laboratório de anatomia histopatológica de uma universidade, no qual se obteve o resultado de lesão óssea benigna, sugestiva de fibroma ossificante central. O paciente segue com 2 anos de pós-operatório, não apresentando sinais de recidiva.

Palavras-chave: Fibroma ossificante; Neoplasias; Maxila.

Abstract

Central ossifying fibroma is a slow-growing, circumscribed, benign and aggressive fibro-bony tumor, known for its expansive growth, the replacement of bone for a fibrous cellular tissue with a focus on mineralization. This lesion occurs in the third or fourth decades of life, with a predilection for females. It affects the mandibule in 70% to 80% of cases. Treatment includes enucleation and curettage or surgical resection for larger lesions. Thus, the aim of this article is to present and evaluate the resources of a clinical case of central ossifying fibroma in the maxilla. Female patient, 34 years old, HIV positive, appear on the service of maxillofacial surgery with painless swelling in the face for months after tooth extraction 12, resulting in feeding difficulties during chewing. On physical examination, diffuse intra and extra-oral edema is evident in the anterior region of the right maxilla, a hardened consistency with 10 months of growth. An incisional biopsy was performed and the material sent for histopathological analysis that concludes of benign bone lesions, suggestive of central ossifying fibroma. The patient underwent enucleation and surgical curettage, under general anesthesia, and was followed-up for 2 years, with no signs of recurrence.

Keywords: Ossifying fibroma; Neoplasms; Maxilla.

Resumen

El fibroma osificante central es un tumor fibroso óseo raro, de crecimiento lento, bien circunscrito, benigno y agresivo, conocido por su aumento expansivo, caracterizado por la sustitución del hueso por un tejido celular fibroso que contiene focos de mineralización. Esta lesión generalmente ocurre en la tercera o cuarta décadas de la vida, con predilección por las mujeres. Afecta la mandíbula en 70% a 80% de los casos. El tratamiento incluye enucleación y legrado o resección quirúrgica para lesiones más grandes. Por lo tanto, el objetivo de este artículo es presentar y evaluar las características de un caso clínico de fibroma osificante central en el maxilar superior. Paciente femenina, de 34 años, VIH positiva, asistió al servicio de cirugía maxilofacial quejándose de hinchazón indolora en la cara durante 12 meses después de la extracción del diente 12, lo que resulta en dificultades para comer durante la masticación. El examen físico reveló edema intraoral y extraoral difuso en la región anterior del maxilar derecho, de consistencia endurecida, con 10 meses de crecimiento. Se realizó una biopsia incisional y el material se envió para un análisis histopatológico concluyente de la lesión ósea benigna, lo que sugiere un fibroma osificante central. El paciente fue sometido a enucleación y legrado quirúrgico, bajo anestesia general, seguido 2 años después de la operación, sin signos de recurrencia.

Palabras clave: Fibroma osificante; Neoplasias; Maxilar.

1. Introdução

Lesão fibro-óssea é um termo usado para um grupo de doenças que podem acometer os ossos da face, em que o tecido ósseo normal é substituído por fibroblastos e tecido fibroso, com formação de quantidades variáveis de material mineralizado (Silva-Sousa, et al., 2013; Misra, et al., 2015). Essas lesões foram classificadas por Waldron e Giansanti em três grupos distintos; a) displasia fibrosa, (b) lesões fibro-ósseas que surgem no ligamento periodontal que incluiria fibroma ossificante central e ossificante periférico (c) neoplasias fibro-ósseas de incerto ou discutível relacionamento, nos quais osteoblastoma e cementoblastoma foram categorizados (John, et al., 2016).

Desde a classificação da Organização Mundial da Saúde (OMS) em 2005, o termo fibroma cemento-ossificante foi reduzido a fibroma ossificante (FO) (Silveira, et al., 2016; Saad, et al., 2018). Em 2017 a Classificação da Organização Mundial da Saúde (OMS) de tumores de cabeça e pescoço classificou os FOs em lesões fibro-ósseas e osteocondromas. Três variantes clínico-patológicas foram identificadas, com base na idade de início,

apresentação clínica, comportamento potencial, padrão de mineralização e características histopatológicas: Fibroma Ossificante (FO) e dois FOs juvenis: FO juvenil psamatóide (FOJP) e FO juvenil trabecular (FOJT), que podem ocorrer em sítios extragnáticos do esqueleto craniofacial e em idade precoce (Alghonaim, et al., 2018; Kawaguchi, et al., 2018).

O fibroma ossificante central é um tumor fibro-ósseo de crescimento lento bem circunscrito, raro, benigno e agressivo. Tal lesão também é conhecida por aumentar de forma expansiva e é caracterizada pela substituição de osso por um tecido celular fibroso contendo focos de mineralização. São encontrados principalmente nos ossos da face. (Neville, 2010; Gomes-Ferreira, et al., 2017; Ahmad & Gaalaas, 2018).

Muitas vezes é assintomática e raramente grande o suficiente para causar assimetria facial. As características radiográficas do fibroma ossificante central apresentam dois principais padrões, padrão radiolucido unilocular expansível e configuração multilocular, bem definida com vários graus de mineralização. O tratamento compreende enucleação e curetagem ou ressecção cirúrgica para lesões maiores. Radiograficamente, na maior parte dos casos, a lesão é unilocular (Woo, et al., 2015; Kharsan et., 2018). Essa lesão geralmente ocorre no terceiro ou quarta décadas de vida com uma predileção feminina. Afeta a mandíbula em 70% a 80% dos casos e é então preferencialmente localizado na área dos molares pré-molares, seguido pela maxila e seios paranasais (Saad, et al., 2018). O subtipo mais comum é FO convencional/central, que afeta exclusivamente as áreas dentárias dos maxilares é considerada uma Neoplasia odontogênica (Lee, et al., 2018).

O Fibroma Ossificante é uma lesão incomum e poucas séries de casos foram publicadas, principalmente em região de maxila, que tem sua predileção etiológica em mandíbula. Assim, o objetivo deste artigo é apresentar e avaliar as características de um caso clínico de um paciente com Fibroma Ossificante Central em maxila.

2. Metodologia

Trata-se de um estudo descritivo, retrospectivo, qualitativo, feito por meio da técnica de observação direta (Pereira et al., 2018), sendo o pesquisador o instrumento primordial. Os dados do paciente foram coletados com acesso ao prontuário e exames solicitados, sendo apresentados em ordem cronológica. Seguindo os princípios éticos, o paciente consentiu com a divulgação dos dados e exibição de imagens de seu caso com finalidade acadêmica por meio da assinatura de um Termo de Consentimento Livre e

Esclarecido.

3. Relato de Caso

Paciente do sexo feminino, 44 anos de idade, HIV positivo, compareceu ao ambulatório de Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial do Hospital Universitário Lauro Wanderley (HULW), Universidade Federal da Paraíba (UFPB) na cidade de João Pessoa, Paraíba, Brasil, cuja queixa principal foi aumento de volume indolor em região maxilar direita com cerca de 12 meses de evolução, após histórico de exodontia do dente 12, resultando em dificuldades para se alimentar durante a mastigação, como pode ser observado na Figura 1.

Figura 1: Vista caudo-cranial evidenciando aumento de volume em região zigomáxicomaxilar direita (seta).



Fonte: Autores.

A paciente relatou fazer uso de Zidovudina (AZT), não consumir álcool e/ou ser tabagista. Ao exame físico não foi observado alterações nos sinais vitais, afebril, sem alterações oftálmicas, bem como sem limitações de abertura bucal e movimentos mandibulares. O aumento de volume em região maxilar direita tinha consistência endurecida.

A Figura 2 apresenta o exame intra-oral, podendo observar uma massa fibrosa, rosada, séssil, com único lobo, indolor, estendendo-se do dente 12 ao 17, envolvendo o fundo de vestibulo, sem repercussões nos dentes adjacentes. O estado de higiene bucal do paciente era ruim com a presença de fatores locais abundantes, como cálculo e placa.

Figura 2: Exame clínico intra-oral pré-operatório.



Fonte: Autores.

Foi solicitada radiografia panorâmica dos maxilares, como pode ser observada na Figura 3, onde se observa ausência de múltiplos dentes, com reabsorção óssea nessa região edêntula; imagem radiolúcida em região de periápice do dente 11 sugestiva de lesão periapical e imagem radiopaca na região correspondente ao dente 14, como possível esclerose óssea e presença de imagens sugestivas de lesões cariosas e tártaros. Não foram observadas alterações significativas em região maxilar direita.

Figura 3: Radiografia panorâmica dos maxilares pré-operatória.

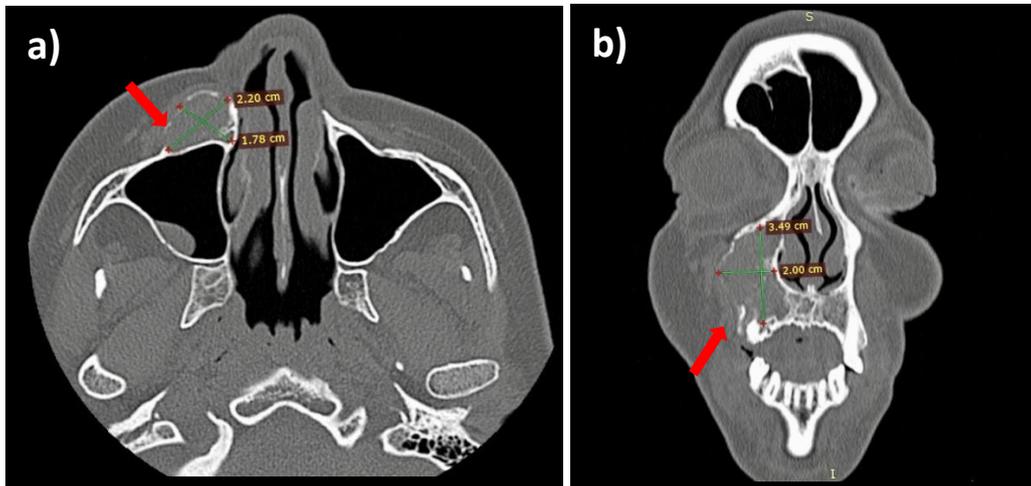


Fonte: Autores.

Em seguida foi realizada tomografia computadorizada de face, observando-se em janela para tecido ósseo uma imagem hiperdensa de bordas bem definidas separada do osso adjacente por uma delgada linha hipodensa, crescimento expansivo em região paranasal no lado direito, sem invasão do seio maxilar, medindo aproximadamente 3,5 x 2,6 x 2,0 cm. Internamente à lesão foi observada imagem de densidade mista, com aspecto de vidro

fosco, sugerindo displasia fibrosa, como pode ser visto nos cortes “a” e “b” da Figura 4.

Figura 4: Tomografia Computadorizada de face pré-operatória: a) corte axial revelando imagem hiperdensa circunscrita apontada pela seta b) corte coronal da região da lesão indicada pela seta com aspecto de vidro despolido.



Fonte: Autores.

Foi realizada uma biópsia incisional e o material encaminhado para análise histopatológica, onde observou-se uma lesão óssea benigna, sugestiva de fibroma ossificante central. Com base nesses resultados optou-se pela exérese cirúrgica, sob anestesia geral.

A Figura 5 ilustra a realização do acesso cirúrgico de Keen em maxila direita, seguida de divulsão mucoperiosteal e exposição da lesão. Esta foi facilmente destacada do osso e removida; a região peri-lesional curetada para evitar possíveis recidivas, com posterior sutura contínua utilizando fio vicryl 4.0.

Figura 5: acesso de Keen expondo o sítio patológico.



Fonte: Autores.

A lesão foi acondicionada em formal 10% e enviada para realização de exame anatomopatológico, o qual revelou lesão óssea benigna, sugestiva de fibroma ossificante central, como pode ser identificado na Figura 6. Foi observada microscopicamente lesão fibro-óssea caracterizada pela presença de trabéculas ósseas com variados graus de maturação, desde uma deposição osteide até trabéculas ósseas maduras interconectadas, entremeadas por numerosas células mesenquimais de formato fusiforme e ovoide sugestivo de FO variante Central.

Figura 6: Aspecto macroscópico da lesão.

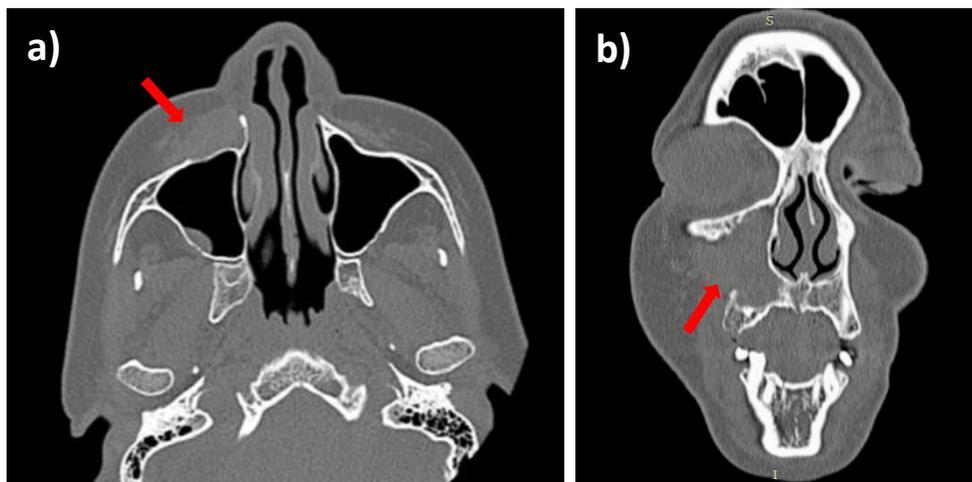


Fonte: Autores.

O acompanhamento tomográfico de 1 mês após o procedimento cirúrgico foi realizado, onde observou-se remoção completa da lesão, sem sinais sugestivo de recidivas., como pode ser identificado na Figura 7. O paciente fez acompanhamento pós-operatório de dois anos, sem sinais de recidiva.

Figura 7: Tomografia Computadorizada de face pós-operatória: observa-se nos locais onde havia a lesão (setas) ausência de sinais sugestivos de lesão ou recidivas:

a) corte axial b) corte coronal



Fonte: Autores.

4. Discussão

Uma variedade imensa de neoplasias benignas e malignas são encontradas na região maxilofacial, das quais muitas apresentam um diagnóstico desafiador devido à complexidade das estruturas anatômicas e diversidade de lesões odontogênicas e não odontogênicas (Woo, 2015; Uesugi, et al., 2019).

O fibroma ossificante é uma neoplasia benigna que foi primeiramente descrita por Menzel (1872) como fibroma cemento-ossificante. Porém, sua terminologia foi designada por Montgomery em Fibroma Ossificante (FO) (1927), o qual descreve a patologia como uma doença de caráter não neoplásico caracterizada por proliferação de tecido fibroso e formação de tecido duro muito semelhante a osso (Misra, et al., 2015; Woo, 2015; Uesugi, et al., 2019; Yadav & Gulati, 2009).

Semelhante a outras lesões fibro-ósseas dos ossos gnáticos, o FO desenvolve-se

como um crescimento reativo ou neoplásico, acarretando na substituição anormal de tecido ósseo por tecido conjuntivo fibroso com algum tipo de mineralização: osso maduro ou imaturo, cemento ou osteocemento com calcificações podendo estar envolvidas nessas lesões. Sua gênese decorre do ligamento periodontal, onde ao analisar os casos com histórias clínicas radiográficas e histopatológicas, esse grupo de lesões foi considerada com um espectro que aumentam significativamente as células no ligamento periodontal (Misra, et al., 2015; Hamner, et al., 1968).

Acreditava-se que a displasia fibrosa (DF) e o FO eram variantes da mesma entidade até 1948, quando Sherman e Sternberg descreveram em detalhes e, desde então, a FO tem sido considerada uma lesão distinta (Woo, 2015). As duas lesões apresentam características clínicas, radiográficas e microscópicas semelhantes. O aspecto clínico radiográfico bem delimitado do fibroma ossificante e a facilidade com que podem ser separados do osso normal é o principal diferencial com relação à displasia fibrosa (Silveira, et al., 2016).

O FO pode se apresentar em suas formas central e periférica, onde o tipo central tem origem no endóstio com crescimento em osso medular. Já o tipo periférico é descrito como originário do processo alveolar subjacente aos tecidos moles (perióstio) (Misra, et al., 2015; Uesugi, et al., 2019; Yadav & Gulati, 2009).

Exodontia prévia e periodontite são indicadas como possíveis fatores para desenvolvimento de FO, pois geram uma perturbação na maturação óssea de origem congênita. O crescimento é relativamente lento. Dor e parestesia raramente estão associadas aos fibromas ossificantes (Kharsan, et., 2018; Hamner, et al., 1968). Apesar de isto ainda não ser um consenso, o caso em questão está de acordo com a literatura que faz essa correlação.

Relatos da literatura demonstram que pode ocorrer envolvimento da lesão com dentes com mobilidade e reabsorção radicular apenas em 17% dos casos (Silveira, et al., 2016). No presente caso não foi observado envolvimento dos dentes ou parestesias.

Radiograficamente o FO central apresenta-se como uma lesão, unilocular, radiolúcida a depender da quantidade de material calcificado produzido pelo tumor. Porém, mais frequentemente observam-se graus variáveis de radiopacidade e margens escleróticas. Faz diagnóstico diferencial com displasia-cemento-óssea focal, cisto ontogênico, granuloma periapical, cisto ósseo traumático, ameloblastoma unilocular e granuloma central de células gigantes. Misra, et al., 2015; Neville, 2010; Kharsan, et., 2018; Abu, et al., 2018). No caso discutido, foram levantados como hipóteses diagnósticas: displasia fibrosa, granuloma central de células gigantes, tumor de pindborg e mixoma.

Embora raros, alguns autores tem relatado casos de fibromas ossificantes gigantes,

mostrando-se como lesões expansivas maciças medindo mais de 10 centímetros (Misra, et al., 2015; Kharsan, et., 2018). No caso em questão a lesão localizada na maxila media cerca de 3,5 x 2,6 x 2,0 cm.

Quanto a localização, o sitio mais relatado é a mandíbula em 70 a 90%, dos casos, especialmente na região molar (Saad, et al., 2018; Uesugi, et al., 2019, Silveira, et al., 2016). O caso em questão vai de encontro a literatura, tendo em vista que a lesão ocorreu na maxila, sitio incomum para o desenvolvimento desta lesão.

Os achados microscópicos no exame histopatológico estão de acordo com a literatura, que apresenta descrição de características semelhantes com destaque para as trabéculas ósseas com variados graus de maturação (Silva-Sousa, et al., 2013; John et al., 2016).

Apesar de tendência de invasão e recorrência local, enucleação com curetagem é o tratamento inicial de escolha para pequenos FO. A ressecção cirúrgica é indicada apenas para lesões maiores, pois a excisão cirúrgica conservadora não tem mostrado altas taxas de recorrência (6-28%) durante um período de acompanhamento de 17 anos. O prognóstico é bom, e é essencial um acompanhamento periódico em longo prazo (Silva-Sousa, et al., 2013; Gomes-Ferreira, et al., 2017; Kharsan, et., 2018).

Dessa forma, o tratamento cirúrgico mais conservador proposto no caso relatado mostra-se efetivo, tendo em vista que não há sinais de recidiva com 2 anos de pós-operatório. Porém, é necessário manter o acompanhamento por mais tempo a fim de assegurar ausência de recidivas.

5. Considerações Finais

O fibroma ossificante central é uma lesão fibro-ossea benigna, rara, que acomete na grande maioria dos casos a mandíbula. Faz diagnostico diferencial com diversas outras lesões fibro-ósseas, podendo manifestar-se de formas completamente distintas a depender do grau de mineralização do tumor. Dito isso, o correto diagnóstico é fundamental para que se possa conduzir o tratamento da melhor forma possível, sendo a enucleação com curetagem se mostrado uma forma de tratamento efetiva e menos mórbida para os pacientes.

Referências

Abu, E., Sadat, S. M. A., Ashiry, M. K., Mostafa, R. A., et al (2018). An Immature Ten-year Longstanding Case of Ossifying Fibroma. *Cureus*, 10(6), 2782.

Ahmad, M., & Gaalaas, L. (2018). Fibro-Osseous and Other Lesions of Bone in the Jaws. *Radiol Clin North Am*, 56(1), 91-104.

Alghonaim, Y., Humaid, S. A. L. R., Arafat, A. (2018). Aggressive Ossifying Fibroma of Right Ethmoidal Sinus: A Case Report. *International Journal of Surgery Case Reports*, 513–516.

Gomes-Ferreira, P. H., Carrasco, L. C., de Oliveira, D., Pereira, J. C., Alcalde, L. F., Faverani, L. P. (2017). Conservative Management of Central Cemento-Ossifying Fibroma. *J Craniofac Surg*, Jan;28(1).

Hamner, J. E., Scofield, H. H., Cornyn, J. (1968). Benign fibro-osseous jaw lesions of periodontal membraneorigin, an analysis of 249 cases. *Cancer*; 22(4): 861-878.

John, R. R., Kandasamy, S., Achuthan, N. (2016). Unusually large-sized peripheral ossifying fibroma. *Ann Maxillofac Surg*; 6: 300-3.

Kawaguchi, M., Kato, H., Miyazaki, T., Kato, K., Hatakeyama, D., Mizuta, K., Aoki, M., Matsuo, M. (2018). CT and MR imaging characteristics of histological subtypes of head and neck ossifying fibroma. *Dentomaxillofac Radiol*, Jul; 47(6).

Lee, S., Liu, P., Teinturier, R., Jakob, J., Tschaffon, M., Tasdogan, A., et al (2018). Deletion of Menin in craniofacial osteogenic cells in mice elicits development of mandibular ossifying fibroma. *Oncogene*, Feb 1;37(5):616-626.

Misra, S. R., Saigal, A., Rastogi, V., Priyadarshini, S. R., Pati, A. R. (2015). Giant Central Ossifying Fibroma of the Maxilla Presenting with a Pus Discharging Intra-Oral Sinus. *Journal of Clinical and Diagnostic Research*, Jan, Vol-9(1): 08- 11.

Neville, B. W., Damm, D. D., Chi, A. C., Allen, C. M. (2018). Oral and maxillofacial pathology. *Elsevier Health Sciences*, 2:563-564.

Saad, R., Lutz, J. C., Riehm, S., Marcellin, L., Gros, C. I., Bornert (2018). Conservative management of an atypical intra-sinusal ossifying fibroma associated to an aneurysmal bone cyst. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*, Apr;119(2):140-144.

Silva-Sousa, A. M., Correa, Y. T., Teiga, M. M. F., dos Anjos, P. M. L., de Moraes, R. P. F. M., da Cruz, P. D. E. (2013). Ossifying Fibroma of the Jaws: A Clinicopathological Case Series Study. *Braz Dent. J.*, Dec 24(6): 662-666.

Silveira, D. T., Cardoso, F. O., Alves e Silva, B. J., Cardoso, C. A. A., Manzi, F. R. (2016). Fibroma ossificante: relato de caso clínico, diagnóstico imagiológico e histopatológico, e tratamento feito. *Ver Bras Ortop*, 51 (1): 100-104.

Uesugi, U. M., Mochida, K., Harada, H. (2019). Ossifying fibroma arising from the zygomatic arch: *A case report. J Stomatol Oral Maxillofac Surg*.

Woo, S. B. (2015). Central Cemento-Ossifying Fibroma: Primary Odontogenic or Osseous Neoplasm? *J Oral Maxillofac Surg.*, 73: 87- 93.

Yadav R., & Gulati A. (2009). Peripheral ossifying fibroma: a case report. *J Oral Sci.*,51(1):151-4.

Porcentagem de contribuição de cada autor no manuscrito

Carlson Batista Leal – 30%

Danilo de Moraes Castanha – 20%

Davi Felipe Neves Costa – 20%

Sirius Dan Inaoka – 15%

Ítalo de Lima Farias – 10%

Natália Lins de Souza Villarim – 5%