

Fibroma Ossificante Juvenil: Relato de 2 Casos

Juvenile Ossifying Fibroma: Report of 2 Cases

Fibroma Ossificante Juvenil: Informe de 2 Casos

Alexsander Saraiva dos **SANTOS**

Graduado em Odontologia, Universidade do Estado do Amazonas (UEA) 69054 - 461, Manaus - AM, Brasil

Tiago Novaes **PINHEIRO**

Mestre e Doutor em Patologia Bucal pela Faculdade de Odontologia de Bauru, Universidade de São Paulo

Professor Adjunto do Curso de Odontologia da Universidade do Estado do Amazonas (UEA) 69036-490, Manaus - AM, Brasil

<https://orcid.org/0000-0003-2987-4759>

Flávio Tendolo **FAYAD**

Doutor em Implantodontia pela Faculdade de Odontologia São Leopoldo Mandic, SLMANDIC,

Professor Adjunto do Curso de Odontologia da Universidade do Estado do Amazonas (UEA) 69036-490, Manaus - AM, Brasil

<https://orcid.org/0000-0003-1622-0019>

Resumo

O Fibroma Ossificante Juvenil (FOJ) são lesões fibro-ósseas dos maxilares benignas de origem mesenquimal. Apresenta comportamento clínico mais agressivo e, comumente, acomete crianças e jovens na faixa etária de 5 à 15 anos e é mais comum em maxila. As lesões necessitam de remoção cirúrgica como forma de tratamento. Histologicamente, essa lesão caracteriza-se por estroma fibroso densamente celularizado, exibindo depósitos de osteoide desprovido de margem osteoblástica, associados a trabéculas de osso imaturo mais típicas, no caso de FOJT, e ocasionais estruturas psamomatoides, evidenciadas em FOJP. Este artigo apresenta o tratamento cirúrgico de dois casos, de Fibroma Ossificante Juvenil sendo um Fibroma Ossificante Juvenil Trabecular e outro Fibroma Ossificante Juvenil Psamomatoide. Em um dos casos houve a necessidade de reconstrução com placa de titânio para devolver estética e função ao paciente.

Descritores: Fibroma; Fibroma Ossificante; Mandíbula.

Abstract

Juvenile Ossifying Fibroma (JOF) are fibrous lesions of benign jaws of mesenchymal origin. It is presented in two variables, Juvenile Ossifying Trabecular Fibroma (JTOF) and Juvenile Psammatoid Ossifying Fibroma (JPOF). It presents more aggressive clinical behavior and commonly affects children and young people in the age group from 5 to 15 years and is more common in the maxilla. This lesions require surgical removal as a form of treatment. Histologically, this lesion is characterized by densely cellularized fibrous stroma, presenting osteoid deposits devoid of osteoblastic margin, associated with more typical immature bone trabeculae in the case of JTOF, and occasional psammomatoid structures, evidenced in JPOF. This article presents the surgical treatment of two cases of Juvenile Ossifying Fibroma being one Juvenile Ossifying Trabecular Fibroma and another Juvenile Psammatoid Ossifying Fibroma. In one of the cases there was a need for reconstruction with titanium plate to return aesthetics and function to the patient.

Descriptors: Fibroma; Ossifying Fibroma; Mandible.

Resumen

Los Fibromas Ossificantes Juveniles (FOJ) son lesiones fibro-ósseas de mandíbulas benignas de origen mesenquimal. Presenta un comportamiento clínico más agresivo y afecta comúnmente a niños y jóvenes en el grupo de edad de 5 a 15 años y es más común en el maxilar. Las lesiones requieren extirpación quirúrgica como forma de tratamiento. Histológicamente, esta lesión se caracteriza por estroma fibroso densamente celularizado, presentando depósitos osteoides desprovistos de margen osteoblástico, asociados a trabéculas óseas inmaduras más típicas en el caso de FOJT, y estructuras psammomatoideas ocasionales, evidenciadas en FOJP. Este artículo presenta el tratamiento quirúrgico de dos casos de Fibroma Ossificante Juvenil siendo uno Fibroma Ossificante Juvenil Trabecular y otro Fibroma Ossificante Juvenil Psamomatoide. En uno de los casos hubo necesidad de reconstrucción con placa de titanio para devolver la estética y la función al paciente.

Descritores: Fibroma; Fibroma Osificante; Mandíbula.

INTRODUÇÃO

O Fibroma Ossificante Juvenil (FOJ) são lesões fibro-ósseas incomuns que apresentam como principal característica a substituição de tecido ósseo normal por fibroblastos com consequente formação de fibras colágenas e quantia variável de trabéculas ósseas e estruturas mineralizadas que tem semelhança com cimento, tem predileção pelo sexo feminino¹⁻³. São neoplasias benignas dos maxilares, geralmente apresentam-se assintomáticas até que seu crescimento atinja volume capaz de desenvolver problemas estéticos e oclusais⁴.

O FOJ, representa 2% dos tumores bucais que acometem crianças e adolescentes, sem predileção por gênero ou raça⁵, se diferenciando das demais lesões fibro-ósseas pelo seu potencial de crescimento, e por acometer pacientes em idade precoce, geralmente entre 5 e 15 anos, o que o torna diferente do fibroma ossificante convencional

que acomete adultos entre a 3^o e 4^o década de vida^{6,7}.

De acordo com a literatura atual, o FOJ pode apresentar duas variantes distintas denominadas de Fibroma ossificante juvenil psamomatoide (FOJP) e fibroma ossificante juvenil trabecular (FOJT)⁸.

Radiograficamente ambas as lesões constituem-se em uma radioluscência uni ou multilocular, geralmente apresentando-se radiolúcidas com focos radiopacos^{9,10}.

O principal diagnóstico diferencial dessas lesões é Displasia Fibrosa¹¹⁻¹³. As duas lesões apresentam características clínicas, radiográficas e microscópicas semelhantes. As características clínicas radiográficas bem delimitadas do FOJ e a fácil separação do tumor do seu leito ósseo durante a exploração cirúrgica é o principal diferencial com relação à Displasia Fibrosa⁹.

A natureza circunscrita e bem delimitada da lesão, geralmente, permite a enucleação do tumor⁹. Em casos onde a lesão atinge grandes dimensões se faz necessário muitas das vezes ressecção e reconstrução⁹.

O presente artigo tem como finalidade relatar dois casos de pacientes acometidos pelo FOJ discutir as abordagens e tratamento dessas lesões.

CASOS CLÍNICOS

o Caso 1

Paciente 19 anos, sexo masculino, melanoderma, procurou o Serviço de Cirurgia e Traumatologia Buco-maxilo-facial da instituição dos autores queixando-se de aumento de volume, assintomático, na região posterior de mandíbula direita, com evolução de 9 meses. Ao exame clínico, apresentava assimetria facial, no aspecto intraoral, apresentava expansão da cortical óssea vestibular, de coloração normal e indolor a palpação (Figura 1A e B). Ao exame tomográfico (Figura 1C), observou-se imagem circunscrita hipodensa com focos hiperdensos em região de corpo e ângulo com limites definidos e de forma irregular, sugestivo de Fibroma Cemento-Ossificante (FCO), os dentes presentes na região, apresentavam-se vitais. Foi realizada biópsia incisional, e durante o exame histopatológico foi considerado o diagnóstico de Fibroma Cemento-Ossificante (FCO).

Para o planejamento cirúrgico, foi solicitada prototipagem da mandíbula a partir da tomografia computadorizada. Previamente à cirurgia, foi feita a modelagem de uma placa de reconstrução do sistema 2.4 (Figura 2A), para otimização do tempo cirúrgico. Em ambiente hospitalar, sob anestesia geral, o paciente foi submetido à ressecção total da lesão com margem de segurança (Figura 2B) por meio de acesso intraoral. Em seguida foi feita adaptação de sistema de fixação interna rígida por meio da placa 2.4 (Figura 2C e D) para manter o arcabouço mandibular e promover uma maior resistência mandibular, dessa maneira possibilitando futura reabilitação e procedeu-se com a sutura e curativo compressivo extraoral. Um controle radiográfico foi feito de 6 em 6 meses e não houve recidiva da lesão. O paciente foi encaminhado para reabilitação.

A peça foi enviada para estudo histopatológico (Figura 1D), foi possível identificar material semelhante a tecido conjuntivo fibroso celularizado, trabéculas ósseas, esférulas semelhantes a cimento e uma margem periférica osteóide. após análise das características macro e microscópica e

tempo de evolução do quadro clínico foi possível fechar o diagnóstico em Fibroma Ossificante Juvenil Trabecular (FOJT).

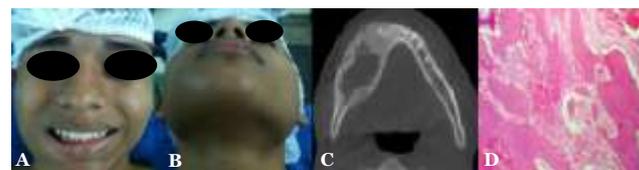


Figura 1: A e B. Vista clínica frontal e inferior; C. Corte axial de tomografia computadorizada, evidenciando lesão unilocular, bem definida com graus variáveis de radiopacidade em região posterior de mandíbula; D. Resultado histopatológico (Fonte: Acervo Pessoal).

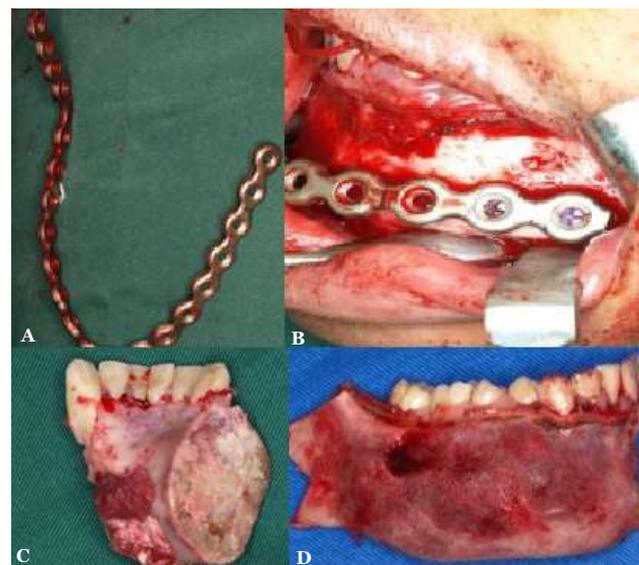


Figura 2: A. Placa pré-modelada B. fixação de placa de reconstrução do sistema 2.4; C. Peça cirúrgica com margem de segurança; D. Aspecto tumoral num corte sagital da peça cirúrgica (Fonte: Acervo Pessoal).

o Caso 2

Paciente, 10 anos, melanoderma, sexo masculino procurou o Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucocomaxilofacial da instituição dos autores, acompanhado do responsável, queixando-se de aumento de volume na região de parassínfise de crescimento lento e indolor, com evolução de 8 meses. Ao exame clínico constatou - se lesão nodular de consistência endurecida com abaulamento ósseo em região de parassínfise (Figura 3A e B) e ramo mandibular direito.

Ao exame de imagem (Figura 3C), constatou-se a presença de lesão circunscrita envolvendo cortical óssea vestibular lingual e em íntimo contato com elementos dentário 83, 84 e 85 os quais foram removidos durante o ato cirúrgico.

Os achados clínicos e radiográficos sugeriam, dentre outras hipóteses, tratar-se de um fibroma ossificante juvenil. Diante disso optou-se pela enucleação, curetagem e remoção dos elementos envolvidos na lesão através de acesso intraoral (Figura 4A e B), com posterior encaminhamento do material ao

laboratório de patologia bucal da instituição dos autores (Figura 4C). O exame macroscópico dos espécimes obtidos revelou diversos fragmentos irregulares de consistência borrachóide e de coloração pardacenta (Figura 4D).

O exame histopatológico evidenciou fragmento de tecido conjuntivo denso não modelado exibindo intensa proliferação de células fusiformes de núcleos volumosos ora ovóides ora alongados, com aspecto homogêneo disperso de cromatina. Observou-se em meio a tais células, inúmeras estruturas basofílicas calcificadas esféricas de tamanho variados em configurando aspecto psamomatoide, e em menor quantidade por estrutura trabeculares semelhantes a osso. Sendo assim classificado como Fibroma Ossificante Juvenil Psamomatoide.

Procedeu-se, então, à sutura e curativo compressivo na região. Foi realizado controle radiográfico e não se verificaram complicações pós-operatórias. Um controle pós-operatório após 8 meses foi feito e clinicamente e radiograficamente o paciente se apresenta sem sinais de recidiva e com áreas de neoformação óssea.

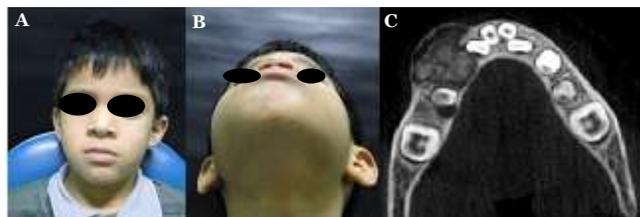


Figura 3: A. Vista clínica frontal; B. Vista inferior; C. TC corte axial demonstrando lesão circunscrita (Fonte: Acervo Pessoal).

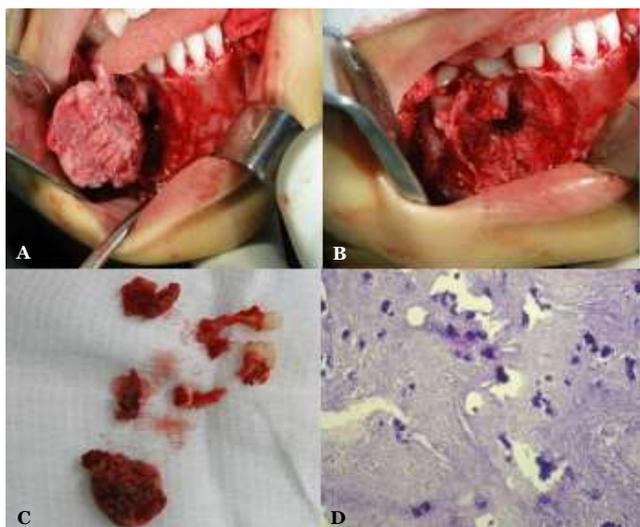


Figura 4. A. Remoção da lesão; B. Loja cirúrgica; C. Histopatológico; D. Peça cirúrgica e exodontias dos dentes associados (Fonte: Acervo Pessoal).

DISCUSSÃO

O FOJ é uma neoplasia benigna incomum; é a variante de aspecto mais agressiva do fibroma cemento-ossificante. A

Organização Mundial da Saúde (OMS) em 2017, definiu essa lesão como uma neoplasia fibro-óssea benigna de crescimento expansivo, progressivo e rápido, que acomete crianças e adolescentes^{14,15}.

O FOJ. Para alguns autores, o diagnóstico definitivo de FOJ deve ser suportado por diversos parâmetros, como: idade dos pacientes (comumente abaixo dos 15 anos), aspectos radiográficos, tendência à recorrência bem como localização anatômica^{19,20}.

O FOJ é uma variante de maior agressividade que afeta os ossos do crânio e os maxilares, com crescimento rápido e, geralmente, em indivíduos de até 15 anos^{7,11}. Clinicamente, pode se apresentar como uma expansão gradual ou rápida, no osso afetado ou a região. Algumas condições como a obstrução nasal, a exoftalmia podem ser associadas com aquelas lesões que invadem os seios paranasais e órbita²¹.

Quanto ao FOJ, há duas classificações: trabecular e psamomatoide. A média de idade dos casos de fibroma ossificante juvenil se apresenta em pacientes de, até 15 anos de idade¹⁷. Nos casos relatados, o diagnóstico foi realizado os pacientes eram jovens como assim afirma a literatura. Estudos recentes mostram que a variante psamomatoide tem acontecido com maior frequência em indivíduos mais velhos, com idade entre 16 e 33 anos⁸. Isso difere do caso relado, onde o paciente tinha apenas 10 anos quando foi diagnosticado.

Algumas características gerais para as lesões de FOJ em mandíbula são a ausência de sintomatologia dolorosa, sendo esses casos descobertos em decorrência da expansão óssea cortical, resultando em assimetria facial^{17,22}, o que é compatível com os casos citado neste estudo. A expansão da cortical que o FOJ causa pode resultar em assimetria facial evidente, levando a uma suspeita de diagnóstico, embora muitos desses tumores sejam descobertos inicialmente no exame radiográfico de rotina⁹. A assimetria facial foi o que levou os pacientes a procurar o serviço odontológico.

A variante Psamomatoide frequentemente aparece fora dos maxilares, com mais de 70% surgindo nos ossos orbital, frontal e nos seios paranasais⁹. O diagnóstico diferencial é feito com o osteoblastoma e lesão intraóssea fibromatosa como o fibroma desmoplásico, a displasia fibrosa, o granuloma central de células gigantes e o querubismo⁹.

O crescimento é lento, a lesão é bem circunscrita e não se continua com o osso normal adjacente. As lesões são radiolúcidas circunscritas e, em alguns casos, contêm

radiopacidades centrais⁹, concordando com o caso descrito. Quanto ao tratamento, em lesões menores, a completa excisão local ou curetagem são mais adequadas. Em lesões que crescem mais rapidamente, uma ressecção mais ampla pode ser necessária⁹. Em um dos casos deste presente artigo foi necessário a ressecção de parte da mandíbula, seguida de reconstrução com placa e parafuso e no outro descrito, optou-se por enucleação mais curetagem, por tratar-se de uma lesão circunscrita e bem delimitada e de menor dimensão.

Não há relatos de transformações malignas e os índices de recidiva são de 30% a 58%⁹. No caso relatado, não observamos sinais de recidiva durante o acompanhamento pós-operatório.

Com relação aos achados radiográficos, há relativa delimitação entre o neoplasma e o tecido ósseo circunvizinho²⁰. Adicionalmente, a expansão das corticais ósseas mandibulares, associadas a graus variáveis de opacidades centrais, constatados por meio da tomografia computadorizada neste caso, também são reportados em outros casos de FOJ¹⁸.

CONCLUSÃO

Diante dessa lesão rara, o diagnóstico foi resultado da combinação de exame clínico, radiográfico e histopatológico. A escolha e realização do tratamento cirúrgico foram baseadas nas evidências científicas comprovadas, levando-se em consideração todos os aspectos necessários, tais como o tamanho e a localização da lesão.

Quando necessário o emprego da fixação rígida com o sistema de placa de reconstrução 2.4 apresentou bom prognóstico levando em consideração a visão holística do paciente, podendo ser encaminhado a reabilitação, devolvendo função e estética ao mesmo. Os pacientes dos casos relatado encontram-se em acompanhamento pós-operatório sem intercorrências e sem recidiva, confirmando o bom prognóstico e a baixa recorrência do fibroma ossificante.

REFERÊNCIAS

1. Wright JM, Vered M. Update from the 4th edition of the world health organization classification of head and neck tumours: odontogenic and maxillofacial bone tumors. *Head Neck Pathol.* 2017;11(1):68-77.
2. Godt A, Gülicher D, Kalwitzki M, Kröber SM. Dislocation of an upper third molar by an ossifying fibroma: a case report. *J Cranio Maxillofac Surg.* 2008;36:360-64.

3. Pinos AJSP, Gaya MVO, Sanchez EP, Capilla MV. Juvenile ossifying fibroma: a case study. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2004;9(5):454-58.
4. Jacobs JB, Berg HM. Destructive cemento-ossifying fibroma of the maxilla. *Ear Nose Throat J.* 1990;69(12):805-8.
5. Martín-Granizo R, Sanchez-Cuellar A, Falahat F. Cemento-ossifying fibroma of the upper gingivae. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000;122(5):775
6. Reichart PA, Philipsen HP. Tumores Odontogênicos. In: Reichart PA, Philipsen HP. Atlas Colorido de Odontologia-Patologia Bucal. São Paulo: Artes Médicas;1999.p.245.
7. 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* 2000; 29:13-18.
8. 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* 2002;93:296-304.
9. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Oral and Maxillofacial Pathology.* 2.ed. Filadelfia: Saunders; 2002. p. 511-53.
10. Gurol M, Uckan S, Guler N, Yatmaz PI. Surgical and reconstructive treatment of a large ossifying fibroma of the mandible in a retrognathic patient. *J Oral Maxillofac Surg.* 2001;59(9):1097-100.
11. Vicente RJC, Gonzales MS, Santa MZJ, Madrigal RB. Tumores no odontogênicos de los maxilares: clasificación, clínica y diagnóstico. *Medicina Oral.* 1997;2(83):10.
12. Aguirre JM. Tumores de los maxilares. In: Bagán JV, Ceballos A, Bermejo A, Aguirre JM, Peñarrocha M. *Medicina Oral.* Barcelona: Masson; 1995. p. 507-8
13. Slootweg PJ. Maxillofacial fibro-osseous lesions: classification and differential diagnosis. *Semin Diagn Pathol.* 1996;13(2):104-12.
14. Han J, Hu L, Zhang C, et al. Juvenile ossifying fibroma of the jaw: a retrospective study of 15 cases. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2016;45(3):368-76.
15. Goulart-filho JAV, Montalli VAM, Santos FP, Soares AB, Araújo NS, Araújo VC. Microvessel density and cell proliferation in juvenile ossifying fibroma: a comparative study with central ossifying fibroma. *Ann Diagn Pathol.* 2018;36:44-9.
16. Canger EM et al. Familial ossifying fibromas: report of two cases. *J Oral Sci.* 2004;46:61-3.
17. Saiz-Pardo-Pinos AJ, Olmedo-Gaya M^oV, Prados-Sánchez E, Vallecillo-Capillo M. Fibroma óseo juvenil: a propósito de un caso clínico. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2004; 9:454-8.

18. Eversole LR, Leider AS, Nelson K. Ossifying fibroma: A clinicopathologic study of sixty-four cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1985; 60:505-11
19. Sun G, Chen X, Tang E, Li Z, Li J. Juvenile ossifying fibroma of the maxilla. *Int J Oral Maxillofac Surg.* 2007;36:82-5.
20. Zama M, Gallo S, Santecchia L, Bertozzi E, De Stefano C. Juvenile active ossifying fibroma with massive involvement of the mandible. *Plast Reconstr Surg.* 2004;113:970-4.
21. Carrera Grano I, Berini Aytés L, Escoda CG. Péripheral ossifying fibroma: Report of a case and review of the literature. *Med Oral.* 2001;6:135-41.
22. Espinosa SA, Villanueva J, Hampel H, Reyes D. Spontaneous regeneration after juvenile ossifying fibroma resection: a case report. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral RadiolEndod.* 2006;102:e32-e35

CONFLITO DE INTERESSES

Os autores declaram não haver conflitos de interesse

AUTOR PARA CORRESPONDÊNCIA

Alexsander Saraiva dos Santos

Curso de Graduação em Odontologia,
Universidade do Estado do Amazonas - UEA,
69054 - 461 Manaus - AM, Brasil
Email: alexsandersantos995@gmail.com

Submetido em 18/10/2021

Aceito em 04/11/2021