

FIBROM OSIFIANT VOLUMINOS MANDIBULAR PREZENTARE DE CAZ

D. Gogălniceanu¹, Daniela Trandafir¹, Carmen Vicol¹, Violeta Trandafir¹, Elisabeta Laba²

Universitatea de Medicină și Farmacie „Gr.T. Popa” Iași

Facultatea de Medicină Dentară

¹ Disciplina Chirurgie Maxilo-Facială

² Disciplina Morfopatologie

A VOLUMINOUS OSSIFYING FIBROMA OF THE MANDIBLE - CASE REPORT (Abstract): Ossifying fibroma is a rare, benign fibro-osseous tumor that most commonly occurs in the bones of the craniofacial skeleton. This well-demarcated lesion is composed of fibrocellular tissue and mineralized material of varying appearances. Ossifying fibroma is a slow-growing, asymptomatic neoplasm that can reach a very large size. Differentiation from other forms of fibro-osseous lesions, such as monoostotic fibrous dysplasia, is often quite difficult. This paper presents a rare case of a voluminous mandibular ossifying fibroma which gave us serious problems of diagnosis and treatment. We have performed a bloc osseous resection which has preserved the alveolar border and has permitted (by apical resections) the conservation all the dents which apical roots were included in the tumoral aria. Surgical treatment in this case has also needed (in the same operation) a reconstructive surgery (because of the estetic and functional considerents). The defect created by the excision of this large lesion was reconstructed with an iliac bone graft and a titanium reconstruction's atela.

KEY WORDS: OSSIFYING FIBROMA, BENIGN FIBRO-OSSEOUS LESIONS.

Correspondență: Dr. Trandafir Daniela, e-mail: trandv1969@yahoo.com*

INTRODUCERE

Cea mai recentă clasificare histologică O.M.S. (2005) a tumorilor capului și gâtului [1] consideră fibroamele osifiante (osteogene) - tumori benigne cu localizare la nivelul oaselor feței, bine delimitate, compuse din țesut fibrocelular și material mineralizat (sau os metaplastic) în proporții variabile. Sunt recunoscute, pe lângă fibromul osifiant convențional, alte două variante histologice: fibromul osifiant trabecular juvenil și fibromul osifiant psamomatoid juvenil.

Yih [2] și Sciubba [3] au atribuit prima descriere a acestei entități lui Menzel, care a realizat-o în 1872. În 1927, Montgomery a fost primul care a utilizat termenul de fibrom osifiant, denumire sub care este cunoscută în prezent [4].

Până în 1948 s-a crezut că displazia fibroasă și fibromul osifiant reprezintă fie aceeași entitate, fie variante ale aceleiași leziuni. În acel an, Sherman și Sternberg au publicat o descriere detaliată a caracteristicilor clinice, radiologice și histologice ale fibromului osifiant, și de atunci, cei mai mulți cercetători sunt de acord că cele două leziuni sunt entități clinice diferite [4].

Leziunea este în general încapsulată, fapt care ajută la diferențierea de displazia fibroasă, care poate avea aspecte clinico-patologice similare [4].

Lucrarea prezintă un caz rar de fibrom osteogen de dimensiuni gigante cu localizare mandibulară care a ridicat probleme de diagnostic dar și de tratament.

* received date: 28.02.2006
accepted date: 10.03.2006

PREZENTAREA CAZULUI

A.T., sex feminin, 19 ani, din mediul rural, se internează în clinică (iunie 2005) pentru asimetrie facială determinată de o formațiune tumorală care proiemină în regiunea submento-submandibulară stângă (Fig. 1), care face corp comun cu osul mandibular, este relativ bine delimitată, de consistență dură, nedureroasă, cu evoluție clinică progresivă de 1 an.



Fig. 1 Formațiune tumorală submento-submandibulară stângă

La examenul intraoral (Fig. 2) se constată că formațiunea menționată șterge fundul de șanț vestibular din dreptul dinților 36-45, mucoasa acoperitoare fiind nemodificată, iar ocluzia dentară menținându-se corectă. Nu se decelează mobilitate dentară anormală, dar se notează hipoestezie cutanată în teritoriile ramurilor alveolare inferioare. Antecedentele personale și heredo-colaterale sunt nesemnificative și examenul clinic general nu obiectivează alte aspecte patologice.



Fig. 2 Aspect intraoral

Explorările imagistice efectuate, ortopantomografia și examenul computer tomografic (CT) nativ și cu substanță de contrast, evidențiază o formațiune expansivă, osteolitică cu diametrele de 4,5 x 7 x 5 cm situată la nivelul hemiramului orizontal stâng și a porțiunii anterioare a hemiramului orizontal drept, determinând suflarea și subțierea corticalei osoase fără a o întrerupe, apexurile dentare 36- 45 fiind cuprinse în interiorul tumorii (Fig. 3).

Sub anestezie generală prin intubație oro-traheală, cu abord chirurgical strict cutanat submento-submandibular bilateral, se extirpă tumora prin rezecție segmentară bazilară cu păstrarea continuității osoase mandibulare la nivel alveolar și cu rezecția apexurilor dentare 36- 45 și obturații directe ale acestor dinți (Fig. 4 A). Reconstrucția pierderii de substanță osoasă a arcului mentonier s-a efectuat cu atelă metalică din titan și grefon osos recoltat din creasta iliacă aplicat pe partea internă a atelei (Fig. 4 B).

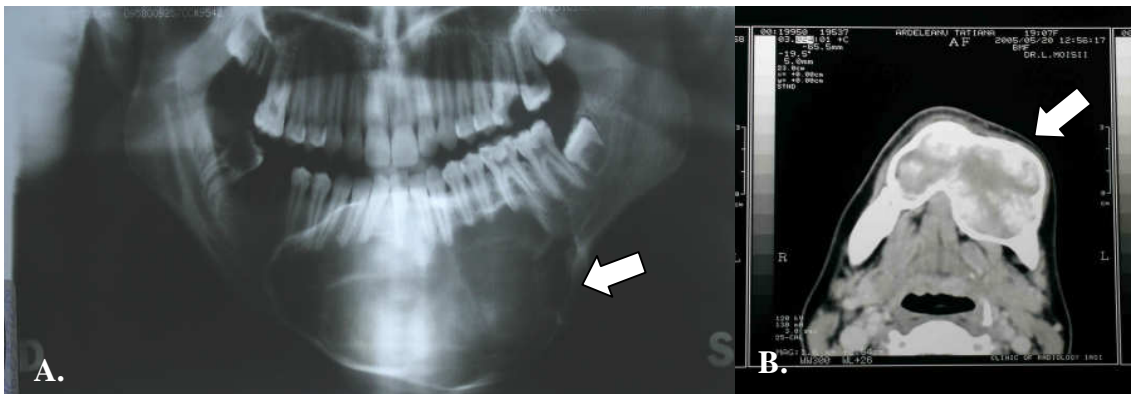


Fig. 3 Explorări imagistice:
A. ortopantomografia; B. computer tomografia

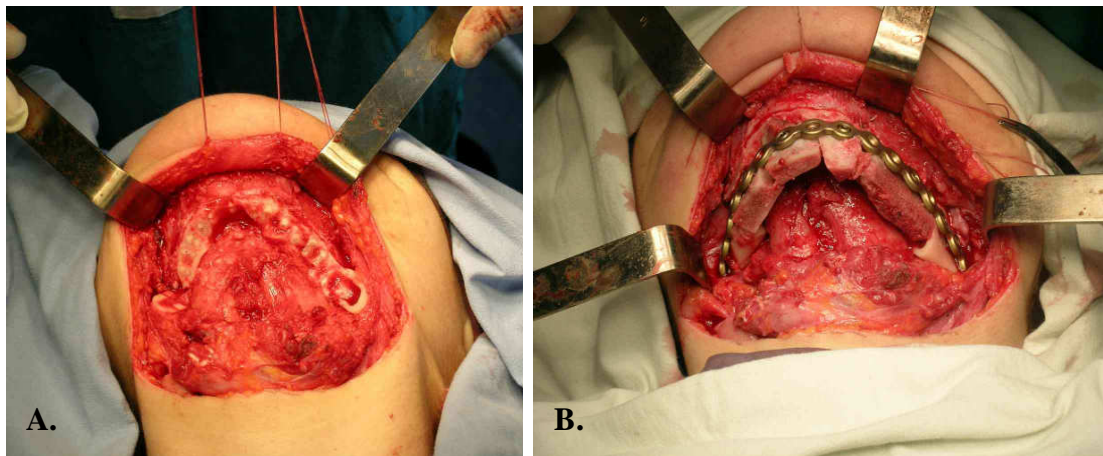


Fig. 4 Aspecte intraoperatorii
A. rezecție segmentară bazilară cu păstrarea continuității osoase mandibulare la nivel alveolar și cu rezecția apexurilor dentare; B. reconstrucția pierderii de substanță osoasă a arcului mentonier.



Fig. 5 Examen histopatologic

Examenul histopatologic al piesei operatorii a evidențiat o tumoră compusă din stromă fibroasă, bogată în fibroblaste, fibre de colagen, vase mici precum și numeroase trabecule osoase dispuse lamelar, ceea ce a justificat diagnosticul de fibrom osifiant (Fig. 5).

Evoluția postoperatorie imediată a fost favorabilă, cu refacerea corespunzătoare a fizionomiei, funcțiile aparatului dento-maxilar nefiind afectate, în prezent pacienta fiind complet vindecată (Fig. 6).

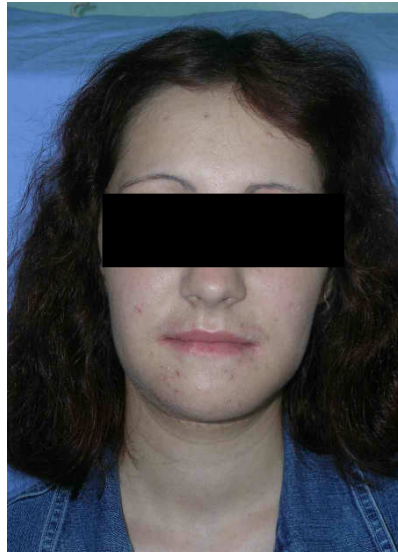


Fig. 6 Aspect postoperator

DISCUȚII

Fibromul osteogen la nivelul oaselor maxilare este o tumoră benignă rară, alcătuită din țesut conjunctiv fibros și proporții variabile de os metaplastic sau țesut mineralizat.

Apare între decadele 2 și 4 de viață, vârsta medie variind după subtipurile histologice:

- 8,5- 12 ani - pentru fibromul osteogen trabecular juvenil;
- 20 ani - fibromul osteogen psammatoid juvenil;
- 35 ani - fibromul osteogen convențional. [1]

Este mai frecvent la femei, raportul femei/bărbați variind între 1,5 / 1 și 5 / 1 [4].

Localizarea cea mai comună este pe mandibulă, zona premolar-molar [1,4]. Fibromul osifiant psammatoid juvenil apare mai ales la nivelul pereților osoși ai sinusurilor paranazale, iar cel trabecular juvenil are predilecție pentru maxilar. S-au mai descris fibroame osifiante la nivelul oaselor: frontal, etmoidal, sfenoidal, temporal precum și în cavitatea orbitală sau în fosa craniană anterioară [1].

În antecedentele pacienților au fost consemnate traumatisme în aria leziunii, extracții dentare, leziuni parodontale, interpretate ca posibili factori „trigger” [4].

Originea fibromului osifiant se află în celulele nediferențiate ale ligamentului parodontal, care au potențialul de a forma os, cement și țesut fibros [1].

Studii genetice au consemnat următoarele anomalii cromozomiale în fibroamele osifiante [1]:

- trei translocări reciproce la cariotipul 46 XY: t (1; 18) (q21; q21.3) ; t (3; 10) (p13; q22) ; t (6; 11) (p22; p15) ;
- alterații ale brațelor scurte ale cromozomilor X, 2 și 7 ;
- puncte de ruptură identice cromozomiale în benzile Xq26 și 2q33 cu translocare reciprocă identică t (X; 2) (q26; q33) ;
- inserție interstițială a benzilor 2q24. 2q33 în Xq26.

Clinic, fibromul osteogen se prezintă ca o masă tumorală localizată, de consistență dură, cu dimensiuni variind între 0,2 - 15 cm, având creștere lentă, deplasând dinții (care își pierd tardiv vitalitatea), mucoasa acoperitoare fiind intactă [5].

Radiologic se descrie ca o leziune bine circumscrisă, inițial osteolitică, ulterior remarcându-se o transformare graduală într-o leziune mixtă. Excepțional poate deveni radioopacă [5]. Au fost descrise două „modele radiologice”: radiotransparență uniloculară cu/fără focare radioopace în interior și radiotransparență multiloculară. Primul „model” este mai comun, radiotransparența înglobând rădăcinile dinților [3].

Su [6] afirmă că cea mai frecventă imagine radiologică asociată cu fibromul osifiant corespunde unei radiotransparențe bine delimitate, cu / fără o margine scleroasă și adesea însoțită de expansiunea corticalei.

Khoury [7] a subliniat rolul radiologului prin aspectele oferite de imagistica performantă în aceste leziuni (CT sau IRM – imagistică prin rezonanță magnetică) în diagnosticarea corectă a fibroamelor osifiante, corelate însă cu aspectele clinice și histopatologice.

Comparativ cu o ortopantomografia, examenul CT [7] va oferi o imagine mai clară a leziunii, ca fiind o radiotransparență bine circumscrisă, expansivă, de consistența țesutului moale, cu arii de calcificare în interior.

Explorarea prin IRM decelează un semnal de intensitate intermediară sau joasă, care se amplifică după injectarea mediului de contrast – gadolinu [7].

Controverse considerabile rămân în privința aspectelor histopatologice ale fibroamelor osifiante. Mulți autori consideră că displazia fibroasă și fibromul osifiant sunt histologic similare, singura diferențiere fiind o capsulă fibroasă care înconjoară fibromul osifiant [5]. Alți autori afirmă că fibromul osifiant este caracterizat de prezența abundentă a osteoclastelor și osteoblastelor și comparând distribuția trabeculară, aceasta pare a fi mai regulată în fibromul osifiant, cu puține fibre colagene și elemente vasculare, dar cu o celularitate crescută [8].

Fibromul osifiant este compus din țesut fibros cu o celularitate variabilă [1]. Componenta mineralizată poate consta din țesut osos, os lamelar și depozite fin conturate din câteva celule bazofile (considerate a fi cement). Datorită prezenței acestui material „cement-like”, fibroamele osifiante au fost denumite și fibroame cemento-osifiante [1]. Cementul este definit ca un material mineralizat acoperind suprafața rădăcinilor dinților și în afara acestei localizări, deosebirea față de țesutul osos este echivocă și fără relevanță clinică [1].

În ceea ce privește configurația țesutului dur în alcătuirea fibromului osifiant, există 4 aspecte: trabecular, lamelar, depozite arcuite, anastomoze trabeculare [4].

Nu s-a stabilit până în prezent vreo corelație între aspectul histopatologic și potențialul de agresivitate al leziunii sau tendința la recurență a acesteia [4].

În absența tratamentului, prognosticul fibromului osifiant este nefavorabil – creștere lentă, continuă; de aceea rezecția trebuie să fie completă.

Sciubba [3] este de părere că enucleerea sau chiuretajul, ca primă opțiune de tratament, aduc o rată de recurență de 0 – 28 %. Dacă în cursul urmăririi cazului se decelează recidiva, rezecția conservatoare este obligatorie. Rezecția radicală nu este susținută de unii autori [3] întrucât s-a dovedit inconstanța recidivelor. Aceștia propun după extirparea conservatoare a fibromului osifiant, supravegherea clinică și radiologică pe termen lung.

Rezecția în bloc va fi indicată în caz de recidivă după o primă intervenție efectuată (de tip chiuretaj chirurgical) sau în cazul leziunilor extinse [4].

Deși pentru fibroamele osifiante active, juvenile, se recomandă de obicei o chirurgie mai extensivă, unii autori recunosc pe termen lung beneficiile unui tratament chirurgical conservator [9]. Leimola-Virtanen și colaboratorii [9] au publicat rezultatele a două cazuri de fibroame osifiante active juvenile rezolvate prin enucleere și chiuretaj, subliniind pentru perioada de urmărire (2 - 5 ani) creșterea mandibulară normală, funcția masticatorie normală și păstrarea funcției nervului alveolar inferior.

Zama și colaboratorii [10] au publicat un caz de fibrom osifiant activ juvenil, cu localizare mandibulară, care a recidivat imediat după enucleere și chiuretaj, cu o creștere agresivă, fără a se putea decela o separare distinctă între tumoră și țesutul osos adiacent, motivând astfel preferința pentru chirurgia radicală, care a condus la pierderea aproape totală a hemimandibulei afectate. Reconstrucția prin grefă costală și plăcuțe de titan, cu păstrarea articulației temporo-mandibulare a permis ca închiderea și deschiderea gurii să rămână neschimbată. Funcția masticatorie a fost conservată prin aplicarea unei proteze dentare mobile, iar la 2 ani postoperator nu s-a constatat nici un semn de creștere asimetrică a mandibulei. Sacrificarea nervului alveolar inferior a însemnat pierderea sensibilității în aria de inervație.

Gurol [11] este de partea autorilor care preferă rezecția în bloc sau rezecția parțială a maxilarelor, pentru a evita sau minimaliza recidiva. Același autor semnalează necesitatea (pentru tumori de mari dimensiuni) chirurgiei reconstructive adiționale după intervenția de extirpare a fibromului osifiant, datorită problemelor estetice și funcționale care apar (mai ales când dinții sunt îndepărtați). Cazul publicat de Gurol în 2001 [11] se referă la o situație particulară de fibrom osifiant, de mari dimensiuni, dezvoltat pe mandibulă la o pacientă adolescentă cu retrognatism mandibular. Defectul creat de extirparea unei leziuni de mari dimensiuni este de obicei reconstruit cu o grefă osoasă, dar în cazul respectiv, după tratamentul ortodontic maxilar a fost preferată corecția prin chirurgie ortognată (osteotomie sagitală mandibulară bilaterală) în locul reconstrucției prin grefă osoasă, datorită amplificării retroganției și a distanței dintre arcade după excizia leziunii, care nu permitea reabilitarea protetică. Zona edentată mandibulară a fost reabilitată prin protezare mobilă pe 3 implante dentare cilindrice.

În cazul prezentat de noi, s-a optat pentru o rezecție în bloc a masei tumorale, în țesut sănătos, cu prezervarea doar a rebordului alveolar al mandibulei, primând ideea reducerii potențialului de recidivă, dată fiind vârsta pacientei. De asemenea, defectul osos considerabil, rezultat în urma rezecției tumorale, a necesitat aplicarea imediată a unei tehnici de reconstrucție adițională, practicându-se osteoplastie prin grefon osos iliac menținut pe atelă de titan care a refăcut conturul arcului anterior mandibular.

Tratamentul de elecție pentru fibromul osifiant este întotdeauna chirurgical; poate consta în excizii conservatoare (dacă leziunile sunt mici) sau dimpotrivă, să se axeze pe chirurgia radicală (când leziunile au dimensiuni mari, în special la nivelul maxilarelor) [11]

Nu există dovezi ale transformării maligne a fibromului osifiant [4].

CONCLUZII

Fibromul osifiant al maxilarelor este o tumoră benignă cu incidență scăzută în populația generală, fiind descoperită îndeosebi la tineri, raportul femei/bărbați variind după diverse statistici între 1,5 / 1 – 5 / 1.

Fibromul osifiant al maxilarelor are dimensiuni variabile, iar localizarea cea mai comună este pe mandibulă, zona premolar-molară.

Particularitatea cazului prezentat a constat în dimensiunile gigante ale tumorii, cu expansiune dominantă către marginea bazilară a mandibulei, ceea ce a permis conservarea tuturor dinților aflați în relație cu tumora prin rezecții apicale și obturații directe radiculare.

Intervenția de extirpare a fibromului osifiant cu localizare mandibulară a necesitat și chirurgia reconstructivă adițională (efectuată în aceeași ședință operatorie) din considerente estetice și funcționale.

BIBLIOGRAFIE

1. Slootweg PJ, El Mofty SK. Ossifying fibroma. In: *Pathology and genetics of Head and Neck Tumours*. Lyon: IARC Press, 2005; p 284, 319-320.

2. Yih WY, Pederson GT, Bartley MH. Multiple familial ossifying fibromas: relationship to other osseous lesions of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1989; 68(6): 754-758.
3. Sciubba JJ, Younai F. Ossifying fibroma of the mandible and maxilla: review of 18 cases. *J Oral Pathol Med*. 1989;18(6): 315-321.
4. Perez-Garcia S, Berini-Aytes L, Gay-Escoda C. Ossifying fibroma of the upper jaw: report of a case and review of the literature. *Med Oral* 2004; 9(4): 333- 339.
5. Zachariades N, Vairaktaris E, Papanicolaou S, Triantafyllou D, Papavassiliou D, Mezitis M. Ossifying fibroma of the jaws. Review of the literature and report of 16 cases. *Int J Oral Surg* 1984; 13(1): 1-6.
6. Su L, Weathers DR, Waldron CA. Distinguishing features of focal cemento-osseous dysplasia and cemento-ossifying fibromas II. A clinical and radiologic spectrum of 316 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1997; 84(3): 301-309.
7. Khoury NJ, Naffaa LN, Shabb NS, Haddad MC. Juvenile ossifying fibroma: CT and MR findings. *Eur Radiol*. 2002;12 Suppl 3: S109-113.
8. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg*. 1985; 43(4): 249-262.
9. Leimola-Virtanen R, Vahatalo K, Syrjanen S. Juvenile active ossifying fibroma of the mandible: a report of 2 cases. *J Oral Maxillofac Surg* 2001; 59(4): 439-444.
10. Zama M, Gallo S, Santecchia L, Bertozzi E, De Stefano C. Juvenile active ossifying fibroma with massive involvement of the mandible. *Plastic and Reconstructive Surg* 2004; 113(3): 970- 977.
11. 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): 1097-1100.