DISPLASIA FIBROSA MONOSTÓTICA: RELATO DE CASO COM ACOMPANHAMENTO CLÍNICO/ RADIOGRÁFICO DE 10 ANOS

Luciana Estevam Simonato[1]
Cleide dos Anjos Santos[2]
Rodrigo Yuji Takano[3]
Ana Maria Pires Soubhia[4]
Glauco Issamu Miyahara[5]

[1] *Mestranda do Programa de Pós-Graduação em Odontologia da Faculdade de Odontologia de Araçatuba – UNESP – Área de Concentração em Estomatologia.*

[2] *Graduanda e estagiária da Disciplina de Estomatologia da Faculdade de Odontologia de Araçatuba - UNESP*

[3] *Graduando e estagiário da Disciplina de Estomatologia da Faculdade de Odontologia de Araçatuba - UNESP*

[4] *Professor Adjunto das Disciplinas de patologia Geral e Patologia Bucal do Departamento de Patologia e Propedêutica Clínica da Faculdade de Odontologia de Araçatuba – UNESP*

[5] *Professor Assistente Doutor da Disciplina de Estomatologia do Departamento de Patologia e Propedêutica Clínica da Faculdade de Odontologia de Araçatuba – UNESP*

Recebido em: outubro de 2007
Aceito em: agosto de 2008

SIMONATO, Luciana Estevam, et al. Displasia fibrosa monostótica: relato de caso com acompanhamento clínico/radiográfico de 10 anos. *Salusvita*, Bauru, v. 28, n. 1, p. 73-84, 2009.

RESUMO

A displasia fibrosa inclui-se no grupo das lesões fibro-ósseas e se caracteriza pela substituição gradativa do osso normal por tecido fibroso imaturo. A forma monostótica é a que mais comumente afeta os ossos maxilares, sendo mais freqüente na maxila, nas duas primeiras décadas de vida e afetando igualmente indivíduos do sexo masculino e feminino. Esse trabalho tem como objetivo apresentar um caso de displasia fibrosa monostótica maxilar em paciente de 16 anos de idade, com 10 anos de proservação, discutindo as características clínicas, radiográficas e histopatológicas que auxiliam no diagnóstico dessa lesão.

Palavras-chave: Displasia fibrosa. Lesão fibro-óssea. Lesão óssea.

ABSTRACT

Fibrous dysplasia is included in the group of fibro-osseous lesion and it is characterizes by the gradual substitution of the normal bone to

immature fibrous tissue. Monostotic type is the most common form that affects the maxillary bones. It is more frequent in the maxilla and the two first decades of life. Equally affect both sex. The purpose of this study is to present a case of monostotic fibrous dysplasia in maxilar, 16 years old patient with 10 years clinical and radiographic follow-up.

Key words: *Fibrous dysplasia. Fibro-osseous lesion. Bone lesion.*

INTRODUÇÃO

As lesões fibro-ósseas constituem um grupo heterogêneo de entidades que incluem lesões de desenvolvimento (hamartomatosas), processos reacionais ou displásicos e neoplasias. Essas lesões apresentam dificuldades para sua classificação, diagnóstico e tratamento (NEVILLE et al. 2004; TAMIOLAKIS et al., 2007; ZUPI et al., 2000).

Dentre estas lesões, a displasia fibrosa é considerada uma afecção benigna, proliferativa e se caracteriza pela substituição gradativa do osso normal por tecido fibroso imaturo (SAURESSIG e OLIVEIRA, 2004). O termo displasia fibrosa foi inicialmente utilizado por Thoma em 1954, tendo sido descrita pela primeira vez em 1938 por Lichtenstein e Jaffe (RICALDE e HORSWELL, 2001, CHEN et al., 2006).

Caracteriza-se por um amplo aspecto clínico, variando da forma focal, limitada a um único osso (monostótica) à forma multifocal envolvendo vários ossos simultaneamente (poliostótica) (AKINTOYE et al., 2003; BECELLI et al., 2002; DAL CINE et al., 2000; NEVILLE et al., 2004; SAURESSIG e OLIVEIRA, 2004; TEREZHALMY et al., 2000; WALDRON, 1993). O tipo poliostótica acomete 20% a 25% dos casos e, pode ser dividida em 3 subtipos: o tipo craniofacial, onde somente ossos do complexo craniofacial são afetados (POSNICK , 1998), incluindo a mandíbula e a maxila (PONTUAL et al., 2004); o tipo Lichtenstein-Jaffe, onde múltiplos ossos do esqueleto são envolvidos e em alguns casos há pigmentações café-com-leite na pele (RICALDE e HORSWELL, 2001) e o tipo Síndrome de Mc Cune-Albright, que se caracteriza por pigmentações cor de café-com-leite na pele, variações endócrinas (BECELLI et al., 2002; POSNICK , 1998; RICALDE e HORSWELL, 2001) e níveis plasmáticos de cálcio, fosfato, fosfatase alcalina e paratormônio alterados (BECELLI et al., 2002; NEVILLE et al., 2004). Já o tipo monostótica nunca está associado com síndrome (HOFMANN et al., 1987) e afeta aproximadamente 80% a 85% de todos os casos, com os ossos

gnáticos estando entre os locais mais comumente afetados (NEVILLE et al., 2004; CHEN et al., 2006).

Neste artigo, relata-se um caso de displasia fibrosa monostótica com 10 anos de preservação, discutindo as características clínicas, radiográficas e histopatológicas que auxiliam no diagnóstico dessa lesão.

RELATO DE CASO

Paciente melanoderma, sexo masculino, estudante, 16 anos de idade, procurou a clínica de Estomatologia da Faculdade de Odontologia de Araçatuba - UNESP, queixando-se de dor na gengiva. Durante a anamnese a mãe do paciente relatou o aparecimento de um aumento indolor na região dos pré-molares superiores do lado direito há aproximadamente 13 anos, tendo crescimento lento e contínuo. O paciente relatou ainda que foi realizada uma cirurgia gengival no local da lesão, há 7 anos, com resultado de hiperplasia fibrosa inflamatória. Nesse mesmo ano, começou a sensação dolorosa na região.

Ao exame físico extrabucal, discreta deformidade era observada no lado direito da face (FIGURA 1), provocando assimetria. Ao exame físico intrabucal observou-se ausência dos dentes 13 a 16 e um abaulamento de consistência óssea na região, estendendo-se tanto

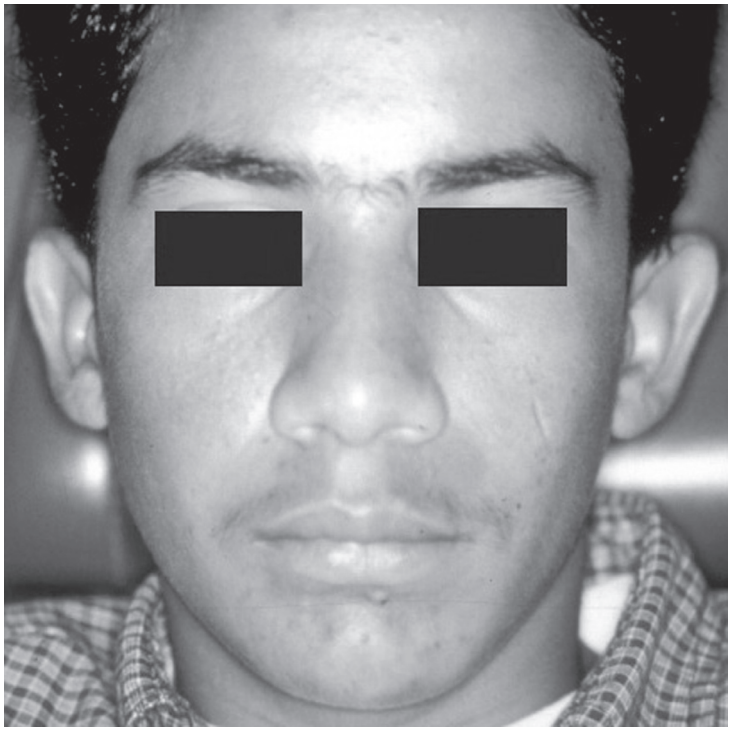

Figura 1 - Discreta assimetria facial com abaulamento do lado direito da face. Paciente com 16 anos de idade

pela vestibular quanto pela palatina, de aproximadamente 4 cm de extensão, recoberta por mucosa íntegra, lisa e normocrômica (FIGURA 2). Quando em oclusão, a área da tumefação do rebordo alveolar tocava os dentes antagonistas (FIGURA 3).

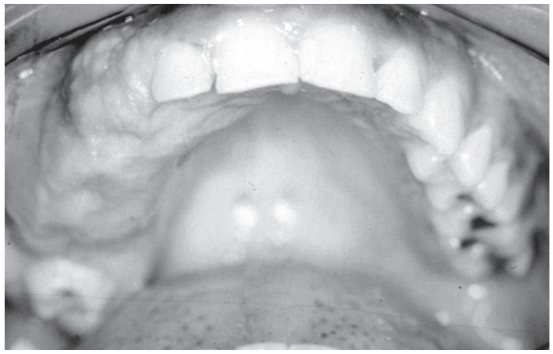

Figura 2 - Expansão da cortical óssea vestibular e palatina na regiã de pré-molares e primeiro molar superiores do lado direito

Figura 3 - Aumento volumétrico do lado direito superior, tocando os dentes antagonistas quando em oclusão.

Foram realizadas tomadas radiográficas panorâmicas (FIGURA 4), que mostraram uma imagem levemente radiopaca, com aparência de "vidro despolido" e sem limites precisos no rebordo alveolar posterior maxilar do lado direito.

Com o diagnóstico clínico de displasia fibrosa, realizou-se uma biópsia incisional e o material foi encaminhado ao Laboratório de Patologia e Propedêutica Clínica da FOA – UNESP. Os cortes histológicos revelaram a presença de trabéculas ósseas dispostas irregu-

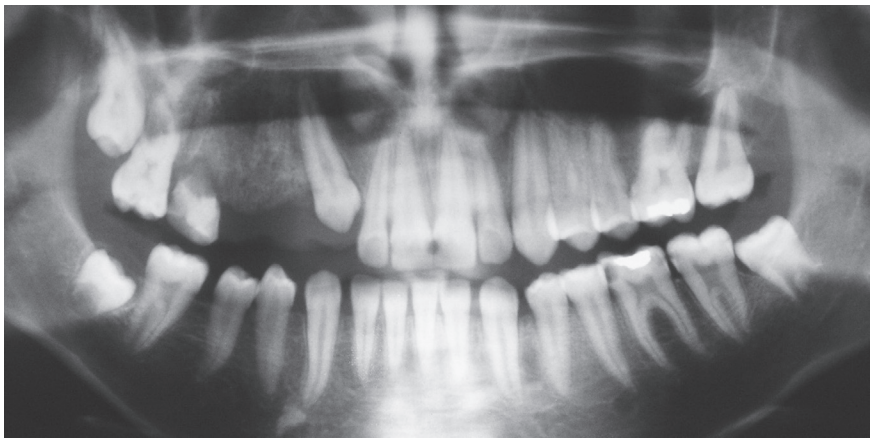

Figura 4 - Radiografia panorâmica inicial mostrando uma imagem levemente radiopaca, com aparência de "vidro despolido".

larmente, não conectadas entre si, assumindo formas curvilíneas em um estroma celularizado e frouxo (FIGURA 5).

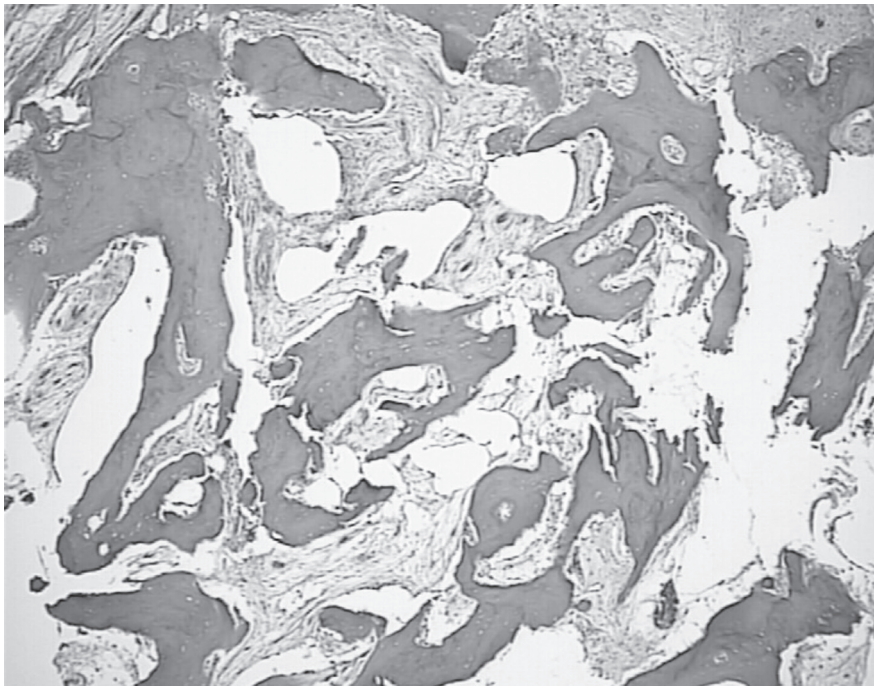

Figura 5 - Aspectos microscópicos da lesão mostrando trabéculas ósseas irregulares dispostas em um estroma fibroso. (H.E. 5x)

Baseando-se nos achados clínicos, radiográficos e histopatológicos, o diagnóstico definitivo foi de displasia fibrosa monostótica.

Outros exames laboratoriais (dosagem sérica de cálcio e fósforo, fosfatase alcalina, proteínas totais e creatinina) e radiográficos (cintilografia) foram realizados e não apontaram nenhuma alteração digna de nota. O tratamento adotado foi o controle clínico e radio-

gráfico do paciente devido à idade do mesmo. Após completar 18 anos (FIGURA 6) e, alcançar uma provável estabilização do crescimento ósseo, o paciente retornou a clínica de Estomatologia da

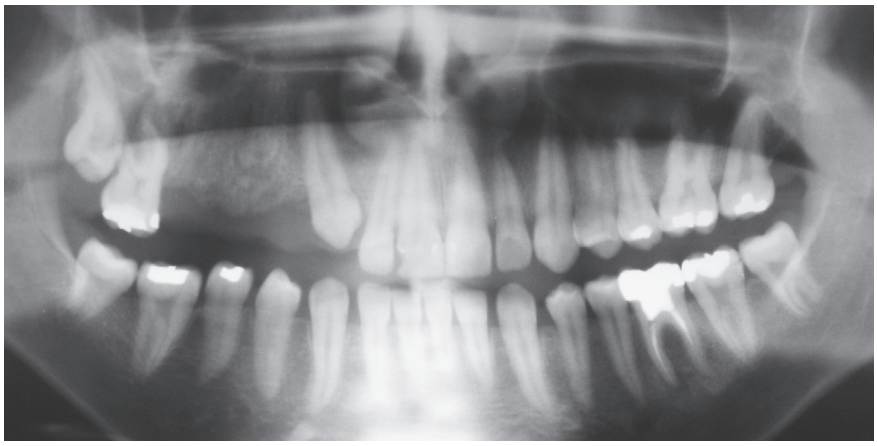

Figura 6 - Radiografia panorâmica realizada aos 18 anos de idade. Após 2 anos de controle.

FOA - UNESP queixando-se de aumento da assimetria facial. Foi explicado novamente ao paciente sobre a evolução da patologia e marcado um novo retorno.

O acompanhamento clínico-radiográfico está sendo realizado anualmente, e após 10 anos de proservação não se observa nenhuma complicação ou sintomas associados à lesão (FIGURAS 7, 8 e 9).

DISCUSSÃO

O diagnóstico de displasia fibrosa nem sempre é estabelecido com facilidade, visto que, não apresenta sinais patognomônicos, podendo ser confundida com outras lesões (TAMIOLAKISet al., 2007). Dessa forma, a soma dos achados clínicos, radiográficos e histopatológicos se fazem necessário para se chegar a um diagnóstico definitivo.

O ora caso descrito enquadra-se na forma monostótica, uma vez que o envolvimento pela lesão limitou-se a maxila, não sendo evidenciada outra alteração sistêmica que denotasse a forma poliostótica. De modo geral, a displasia fibrosa monostótica é uma lesão autolimitante, não encapsulada, que ocorre com maior freqüência na primeira ou segunda década de vida (Alves et al., 2002), sem predileção por sexo ou raça, predominando na região posterior da maxila (FARZANEH e PARDIS, 2005; NEVILLE et al., 2004; PINHEIROS et al., 2001; YASUOKA et al., 2003) à semelhança das características constatadas no presente caso.

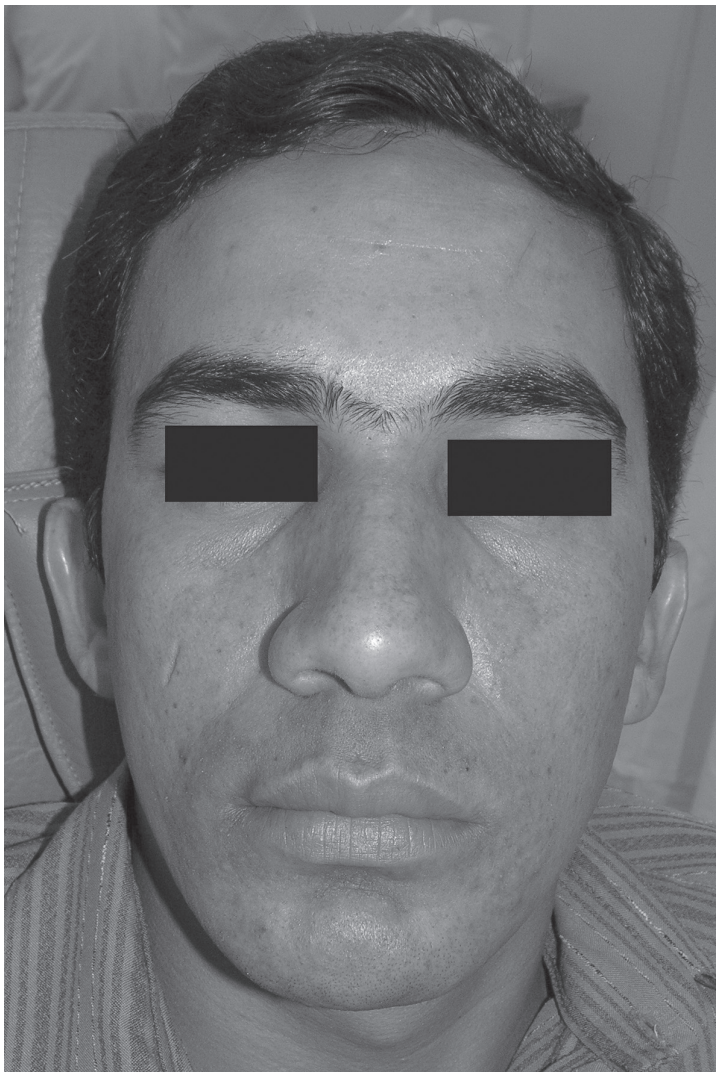

Figura 7 - Aspecto extrabucal do paciente aos 25 anos de idade, com ausência de assimetria facial.

A displasia fibrosa monostótica, geralmente, não apresenta dor; sendo assim, muitas vezes é descoberta em exames clínicos e radiográficos de rotina (BOSCOLO et al., 2003; CENTO et al., 2007). Seus achados radiográficos dependem da proporção relativa entre tecido fibroso e ósseo e do estágio da doença, podendo apresentar-se radiolúcido uni ou multilocular, com radiopacidade em diferentes graus e por fim um aspecto de "vidro despolido", devido a uma radiopacidade granular de pouca definição (ALBUQUERQUE et al., 2006; BOSCOLO et al., 2003; DAL CINE et al., 2000); ainda, as margens da lesão não são bem definidas misturando-se ao osso normal adjacente e, quando a maxila está envolvida, ocorre obliteração do seio maxilar (BOSCOLO et al., 2003). O caso relatado exibiu a aparência característica de "vidro despolido", que apesar de não ser

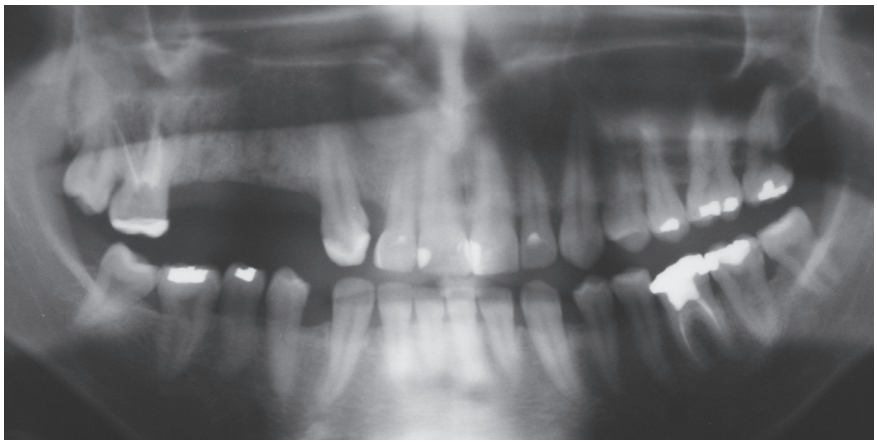

Figura 8 - Aspecto clínico da lesão após 7 anos da realização da osteoplastia, com ausência do abaulamento ósseo.

Figura 9 - Aspecto radiográfico da lesão após 10 anos de acompanhamento.

uma imagem patognomônica dessa doença, facilita sobremaneira o diagnóstico presuntivo. A ausência de limites nítidos também foi observada, corroborando as afirmações de WALDRON et al. (1993).

A tomografia computadorizada tem sido muito útil como auxiliar no diagnóstico da displasia fibrosa monostótica na região de cabeça e pescoço por permitir a visualização da localização exata, dos limites, da extensão e da radiodensidade da lesão, facilitando, também, o plano de tratamento (AKINTOYE et al., 2003; ALBUQUERQUE et al., 2006; MACDONALD-JANKOWSKIet al., 2004; MACHADO et al., 2004).

Os achados microscópicos mostram um estroma fibroso celular, com proliferação de fibroblastos de permeio a fibras colágenas entrelaçadas e delicadas (WALDRON, 1993). As trabéculas ósseas não estão conectadas umas às outras e normalmente assumem formas curvilíneas semelhantes à letra "C" ou formas mais variáveis, lembrando escrita chinesa (BOSCOLO et al., 2003), enquadrando-se com as características histopatológicas do caso relatado, onde se observa um osso imaturo disperso por um tecido conjuntivo frouxo.

O tratamento desta condição depende da sua extensão, da idade e do envolvimento funcional e/ou estético do paciente. O acompanhamento clínico é o mais utilizado, porém nas lesões extensas, com deformidade estética ou funcional, pode-se instituir o tratamento cirúrgico (DE CONTO et al., 2003; CENTO et al., 2007). Segundo Neville et al. (2004), em muitos casos a doença tende a se estabilizar e essencialmente deixa de aumentar quando a maturação do esqueleto é alcançada. Dessa forma o tratamento eleito para o presente caso foram os controles clínicos e radiográficos periodicamente. Após a estabilização do crescimento da lesão, as recidivas são incomuns e o prognóstico é favorável (SILVA et al., 2005). A radioterapia é contra-indicada no tratamento da displasia fibrosa, visto que tem a possibilidade de malignização da lesão, podendo induzir o desenvolvimento de um sarcoma ósseo pós-irradiação, entretanto este fato pode ocorrer espontaneamente, sem a radioterapia, em aproximadamente 0,4% dos casos (BASTOS et al., 2001; BECELLI et al., 2002; DE CONTOet al., 2003; MACHADO et al., 2004). Técnicas alternativas para o tratamento da displasia fibrosa monostótica são relatados na literatura, como o uso da calcitonina (YASUOKA et al., 2003). A calcitonina age por inibição da atividade osteoclástica, aumentando assim o nível de cálcio sérico e estimulando a atividade osteoblástica (O'REGAN et al., 2001).

CONSIDERAÇÕES FINAIS

O diagnóstico da displasia fibrosa monostótica nem sempre é estabelecido com facilidade devendo-se somar os achados clínicos, radiográficos e histopatológicos para se definir um diagnóstico correto para essa lesão, possibilitando o estabelecimento do tratamento adequado para cada caso.

Lembrando que o tratamento conservador é o de eleição, havendo indicação cirúrgica em pacientes antes do início da idade adulta apenas por motivos estéticos ou funcionais. O acompanhamento clínico e radiográfico é considerado de fundamental importância para o

tratamento, com a finalidade de detectar possíveis recidivas ou bem raramente, alterações malignas em estágios iniciais.

REFERÊNCIAS

AKINTOYE, S. O.; LEE, J. S.; FEIMSTER, T.; BOOHER, S.; BRAHIM, J.; KINGMAN, A.; RIMINUCCI, M.; ROBEY, P. G.; COLLINS, M. T. Dental characteristics of fibrous dysplasia and McCune-Albright syndrome. Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology, Oral Radiology and Endodontics, United States, v. 96, n.3, p. 275-82, 2003.

ALBUQUERQUE , M. A. P.; HIROTA, S. K.; MAURÍCIO, A. R.; SUGAYA, N. N.; NUNES, F. D.; CAVALCANTI, M. G. P. Aspectos clínicos, patológicos e imagiológicos de um caso de displasia fibrosa. Revista da Associação Paulista de Cirurgiões Dentistas, Brasil, v. 60, n.3, p. 219-22, 2006.

ALVES, A. L.; CANAVARROS, F.; VILELA, D. S. A.; GRANATO, L.; PRÓSPERO, J. D. Displasia fibrosa: relato de três casos. Revista Brasileira de Otorrinolaringologia, Brasil, v. 68, n. 2, p. 288-92, 2002.

BASTOS, E. P.; LOURO, R. S.; TORRES, S. R.; CARDOSO, A. S. Displasia fibrosa dos maxilares: revisão da literatura e relato de dois casos. Revista Brasileira de Odontología, Brasil, v. 58, n. 2, p. 99-101, 2001.

BECELLI, R.; PERUGINI, M.; CERULLI, G.; CARBONI, A.; RENZI, G. Surgical treatment of fibrous dysplasia of the craniomaxillo-facial area: review of the literature and personal experience from 1984 to 1999. Minerva Stomatologica, Italy, v. 51, n. 7-8, p. 293-300, 2002.

BOSCOLO, F. N.; ALMEIDA, S. M.; DOMINGOS, A. C. Displasia fibrosa monostótica: relato de um caso. Revista da Associação Brasileira de Radiologia Odontológica, Brasil, v. 4, n. 1, p. 36-8, 2003.

CENTO, E. A.; LOMASNEY, L M.; DEMOS, T. C,; HAMMADEH, R.; MAGOVERN, B. Radiologic case study. Monostotic fibrous dysplasia. Orthopedics, United States, v. 30, n. 2, p. 166-70, 2007.

CHEN, Y. R.; CHANG, C. N.; TAN, Y. C. Craniofacial fibrous dysplasia: an update. Chang Gung Med J, China, v. 29, n. 6, p. 543-9, 2006.

DAL CIN, P.; SCIOT, R.; BRYS, P.; DE WEVER, I.; DORFMAN, H. ; FLETCHER, C. D.; JONSSON, K.; MANDAHL, N.; MERTENS, F.; MITELMAN, F.; ROSAI, J.; RYDHOLM, A.; SAMSON, I.; TALLINI, G.; VAN DEN BERGHE, H.; VANNI, R.; WILLEN, H. Recurrent chromossome aberrations in fibrous dysplasia of the bone: a report of the CHAMP study group. Chromosomes and Morphology. Cancer Genetics and Cytogenetics, United States, v. 122, n.1, p. 30-2, 2000.

DE CONTO, F.; MENDES, F. J. D.; RHODEN, R. M. Displasia fibrosa monostótica dos maxilares: revisão de literatura e relato de caso. Revista Brasileira de Patologia Oral, Brasil, v. 2, n. 4, p. 37-42, 2003.

FARZANEH, A. H.; PARDIS, P. M. Central giant cell granuloma and fibrous dysplasia occurring in the same jaw. Medicina Oral, Patología Oral y Cirugía Bucal, Spain, v. 1, n. 10, p. E130-2, 2005.

MACDONALD-JANKOWSKI, D. S.; YEUNG, R.; LI, T.K.; LEE, K.M. Computed tomography of fibrous dysplasia. Dento Maxillo Facial Radiology, England, v. 33, n.2, p. 114-8, 2004.

MACHADO, R. A.; SOARES, L. P.; GERHARD-OLIVEIRA, M. Displasia Fibrosa – relato de caso. Revista Brasileira de Patologia Oral, Brasil, v. 3, n. 3, p. 151-4, 2004.

NEVILLE, B. W.; DAMM, D. D.; ALLEN, C. M.; BOUQUOT, J. E. Patologia Oral & Maxilofacial. 2. ed. Rio de Janeiro: Guanabara Koogan; 2004. 798p.

O'REGAN, E.M.; GIBB, D.H.; ODELL, E.W. Rapid growth of giant cell granuloma in pregnancy treated with calcitonin. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, United States, v.92, n.5, p. 532-8, 2001.

PINHEIROS, A. L. B.; FREITAS, A. C.; OLIVEIRA, M. A. M.; VIEIRA, A. L. B.; SOARES, E.S. Displasia fibrosa dos maxilares. Revista Gaúcha de Odontología, Brasil, v. 49, n. 1, p. 30-9, 2001.

PONTUAL, M. L. A.; TUJI, F. M.; YOO, H. J.; BÓSCOLO, F. N.; LMEIDA, S. M. Estudo epidemiológico da displasia fibrosa dos maxilares numa amostra da população brasileira. Odontologia Clínica-Cientifica, Brasil, v. 3, n.1, p. 25-9, 2004.

POSNICK, J. C. Fibrous dysplasia of the craniomaxillofacial region: current clinical perspectives. The British Journal of Oral & Maxillofacial Surgery, Scotland, v. 36, n. 4, p. 264-73, 1998.

RICALDE, P.; HORSWELL, B. Craniofacial fibrous dysplasia of the fronto-orbital region: a case series and literature review. Jour-

nal of Oral and Maxillofacial Surgery, United States, v. 59, n. 2, p. 157-67, 2001.

SAUERESSIG, F.; OLIVEIRA, M. G. Displasia fibrosa poliostótica associada a síndrome de McCune-Albright: relato de caso clínico. Revista Brasileira de Patologia Oral, Brasil, v. 3, n.2, p. 70-6, 2004.

SILVA, A. R. S.; RIBEIRO, A. C. P.; SOARES, M. J.; MIYAHARA, G. I.; MORAES, N. P.; CRIVELINI, M. M. Displasia fibrosa monostótica – relato de caso e acompanhamento clínico/radiográfico de 4 anos. Revista Mineira de Estomatologia, Brasil, v. 1, n. 4, p. 28-32, 2005.

TAMIOLAKIS, D.; THOMAIDIS, V.; TSAMIS, I; ALEXIADIS, G.; SERETIS, K. Clinical, radiological and histological correlation in the diagnostic work-up of cemento-ossifying fibroma of the maxilla: case report. Chirurgia (Bucur), Romania v. 102, n. 3, p. 359-62, 2007.

TEREZHALMY, G. T.; RILEY, C. K.; MOORE, W. S. Fibrous dysplasia. Quintessence International, United States, v. 31, n. 10, p. 768-9, 2000.

WALDRON, C. A. Fibro-osseous lesions of the jaws. Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, United States, v. 51, n. 8, p. 828-35, 1993.

YASUOKA, T.; TAKARI, N.; HATAKEYAMA, D.; YOKOYAMA, K. Fibrous dysplasia in the maxila: possible mechanism of the bone remodeling by calcitonin treatment. Oral Oncology, England, v. 39, n. 3, p.301-5, 2003.

ZUPI, A.; RUGGIERO, A. M.; INSABATO, L.; SENGHORE, N.; CALIFANO, L. Aggressive cemento-ossifying fibroma of the jaws. Oral Oncology, England, v. 12, n. 1, p.129-33, 2000.