

Tratamento cirúrgico de displasia fibrosa recidivante em mandíbula: relato de caso e revisão integrativa

Surgical treatment of recurrent fibrous dysplasia in the jaw: csse report and integrative review
Tratamiento quirúrgico de la displasia fibrosa recurrente en lá mandíbula: reporte de caso y revisión integradora

RESUMO

Objetivo: A finalidade deste trabalho é conhecer a etiopatogenia da displasia fibrosa através de uma revisão integrativa, discutindo suas formas de tratamento, relatar um caso de tratamento cirúrgico e comparar as opções de tratamento da literatura. **Relato de Caso:** Paciente E.F.N, 52 anos, sexo masculino, apresentou-se ao consultório odontológico, informando que havia notado aumento de volume na região posterior de mandíbula do lado esquerdo e dificuldade de instalação de sua prótese parcial removível, durante anamnese, o paciente relatou ter sido diagnosticado e tratado de displasia fibrosa, na mesma região, 8 anos atrás. **Conclusão:** É consenso na literatura que a etiopatogenia da displasia fibrosa está relacionada a mutação genética do gene GNAS-1, entretanto, não está claro os fatores que induzem a essa mutação. Por outro lado, ainda não é consenso dos autores a melhor opção de tratamento, porém, há destaque para o tratamento cirúrgico conservador, por ser uma alternativa que apresenta menor morbidade. **Palavras-chave:** Displasia fibrosa monostótica; Tratamento; Mandíbula; Maxila.; Recidiva.

ABSTRACT

Objective: The purpose of this study is to understand the etiopathogenesis of fibrous dysplasia through an integrative review, discussing its forms of treatment, reporting a case of surgical treatment and comparing the treatment options in the literature. **Case Report:** Patient E.F.N, 52 years old, male, presented to the dental office, reporting that he had noticed an increase in volume in the posterior region of the mandible on the left side and difficulty in installing his removable partial denture. During anamnesis, the patient reported having been diagnosed and treated for fibrous dysplasia in the same region 8 years ago. **Conclusion:** There is a consensus in the literature that the etiopathogenesis of fibrous dysplasia is related to the genetic mutation of the GNAS-1 gene; however, the factors that induce this mutation are not clear. On the other hand, there is still no consensus among the authors as to the best treatment option; however, conservative surgical treatment is highlighted, as it is an alternative that presents lower morbidity. **Keywords:** Monostotic fibrous dysplasia; Treatment; Jaw; Recurrence.

RESUMEN

Objetivo: El propósito de este trabajo es comprender la etiopatogenia de la displasia fibrosa a través de una revisión integradora, discutiendo sus formas de tratamiento, reportando un caso de tratamiento quirúrgico y comparando las opciones de tratamiento en la literatura. **Caso**

Lívia Mirelle Barbosa

ORCID: 0000-0002-8992-2890

Doutorado em Cirurgia e Traumatologia Buco-Maxilo-Facial
- UPE, Brasil

E-mail: dra.liviabarbosa@gmail.com

Caio Vinícius Batista de Arruda

ORCID: 0000-0002-8759-802X

Graduação em Odontologia - UNIFACOL, Brasil
E-mail: caiovinciusa@hotmail.com

Brenda Vitória Silva Getar

ORCID: 0000-0002-5688-690X

Graduação em Odontologia - Unifacol, Brasil
E-mail: brendagetar17@gmail.com

clínico: Paciente E.F.N., 52 años, masculino, acude al consultorio odontológico, refiriendo haber notado un aumento de volumen en la región posterior de la mandíbula del lado izquierdo y dificultad para colocar su prótesis parcial removible. Durante la anamnesis, el paciente refirió haber sido diagnosticado y tratado por displasia fibrosa, en la misma región, hace 8 años. **Conclusión:** Existe consenso en la literatura de que la etiopatogenia de la displasia fibrosa está relacionada con la mutación genética del gen *GNAS-1*; sin embargo, no están claros los factores que inducen esta mutación. Por otro lado, aún no existe consenso entre los autores sobre la mejor opción de tratamiento, sin embargo, se destaca el tratamiento quirúrgico conservador, por ser una alternativa que presenta menor morbilidad. **Palabras clave:** Displasia fibrosa monostótica; Tratamiento; Mandíbula; Recaída.

INTRODUÇÃO

A displasia fibrosa (DF) é um tumor fibro-ósseo benigno não neoplásico, caracterizado pela substituição do tecido ósseo comum por tecido conjuntivo fibroso, ocasionado pela proliferação celular anormal destes tecidos. Essa condição resulta de um desequilíbrio entre os osteoclastos e osteoblastos, devido a mutação genética do gene *GNAS-1*, que codifica a subunidade *alfa* da proteína do nucleotídeo guanina do receptor da superfície celular (proteína G). (6)

A DF pode ser classificada em: Monostótica e Poliostótica. Monostótica, quando o acometimento é limitado a apenas um osso, é a mais comum, está relacionada a 70% a 85% dos casos. Com relação aos ossos gnáticos, a maxila é mais acometida que a mandíbula, com maior incidência nas regiões posteriores, porém, pode se estender e agregar as regiões com proximidade (zigoma, etmóide, esfenóide, frontal, temporal e occipital) sendo denominada de displasia craniofacial. Na poliostótica, está associada a presença de hiperpigmentação ‘café- com-leite’ difundidas por todo o corpo e várias alterações endócrinas, sendo denominada de Síndrome de McCune Albright. (6)

Radiograficamente, as lesões são descritas com opacidade difusa, sendo comparadas frequentemente a características de vidro despolido, casca de laranja e impressão digital. Além dessas alterações, os exames de imagem podem apresentar a expansão das corticais ósseas sem que haja a interrupção, têm potencial para causar a obliteração e deslocamento, de dentes e estruturas anatômicas adjacentes. (5)

Histologicamente, é possível observar a presença de ‘caracteres chineses’ ou ‘sopa de letras’, que pode diferenciar de acordo com o tamanho da lesão. Além disso, pode ser constatado pequenas fendas entre as

trabéculas ósseas, sendo esse um sinal patognomônico. (10)

Para realizar o planejamento do tratamento, o cirurgião deve levar alguns pontos em consideração, tais como: extensão, estabilidade, alterações estéticas e/ou funcionais, como: alterações na fala, respiração ou mastigação; assimetrias faciais, entre outros. O tratamento cirúrgico deve ser realizado mais breve possível, quando algum desses sinais e sintomas forem identificados. O tratamento cirúrgico conservador, apresenta-se como o mais indicado, porém, algumas lesões a depender de sua extensão, local de acometimento, e implicações estética ou funcionais, podem requerer cirurgia mais radical com ressecção parcial do osso afetado, para prevenir deformidades e possíveis recidivas agressivas. (9)

Esta revisão integrativa foi realizada a partir de uma busca ativa em banco de dados disponíveis no: Scielo, Pubmed e Google acadêmico. Foram considerados os seguintes descritores: Displasia fibrosa monostótica; Tratamiento; Mandíbula; Maxila; Recidiva, nos idiomas português e inglês. Após a leitura criteriosa, 10 artigos foram selecionados, seguindo os critérios de inclusão: materiais que corresponderam aos objetivos, tiveram maior correlação com o tema, e terem sido publicados nos últimos 12 anos. E como critério de exclusão: não corresponder ao tema central e aos objetivos, ter sido publicado a mais de 12 anos.

Este trabalho objetiva reconhecer a etiopatogenia da displasia fibrosa através de uma revisão integrativa, discutindo suas formas de tratamento, relatar um caso de tratamento cirúrgico e comparar as opções de tratamento da literatura.

RELATO DE CASO

Paciente E.F.N, 52 anos, sexo masculino, apresentou-se ao consultório odontológico, informando que havia notado aumento de volume na região posterior de mandíbula do lado esquerdo e dificuldade de instalação de sua prótese parcial removível, durante anamnese, o paciente relatou ter sido diagnosticado e tratado de displasia fibrosa, na mesma região, 8 anos atrás.

Após a coleta de dados e exame físico, foi solicitado Tomografia Computadorizada de Feixe Cônico (TCFC), para complementar o diagnóstico. Ao exame imaginológico, pode-se observar a presença de imagem hiperdensa, unilocular, com aumento da espessura óssea no sentido vertical e horizontal, acometendo a parte do corpo mandibular do lado esquerdo. (Figuras 1 e 2)

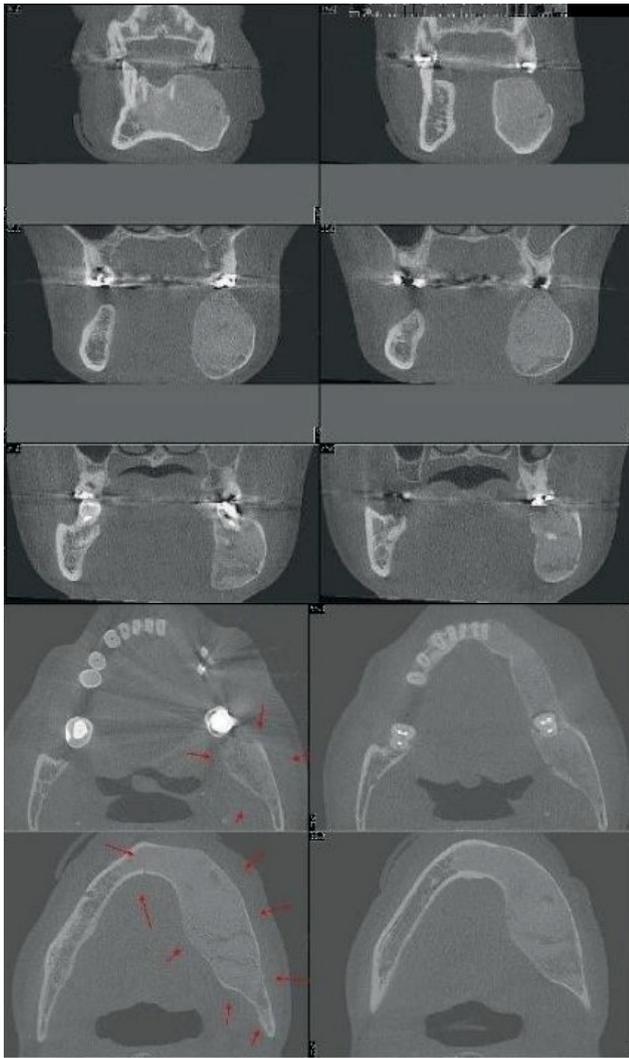


Figura 1 - Tomografia computadorizada inicial.
Fonte: Autoria própria



Figura 2 - Reconstrução 3D da tomografia computadorizada inicial.
Fonte: Autoria própria

Diante das informações coletadas na anamnese, no exame físico e no exame imaginológico, levantou-se a hipótese diagnóstica de recidiva de displasia fibrosa. Para confirmar o diagnóstico, foi escolhido o tratamento cirúrgico com remoção da lesão, osteotomia e osteoplastia do corpo mandibular, com encaminhamento para exame histopatológico. Foram solicitados todos os exames pré-operatórios, e o paciente não apresentava nenhuma condição que contra indicasse o procedimento.

O procedimento cirúrgico foi executado sob anestesia geral, com intubação nasotraqueal. Inicial-

mente, foi realizado assepsia e antisepsia intra e extra oral com Digluconato de Clorexidina 2%, seguida de posição de campo cirúrgico, foi realizado infiltração anestésica local com Ropivacaína (100mg/10mL) para reforço da hemostasia. O acesso cirúrgico foi feito com incisão de base triangular e auxílio de incisão relaxante para melhor exposição do sítio. (Figuras 3A e 3B).

Foi realizado a osteotomia e osteoplastia com piezoelétrico, inicialmente, foi realizado a diminuição da altura óssea, em seguida, feito a osteotomia da espessura, posteriormente realizado a regularização das bordas ósseas com broca Max Cut, foi realizado a irrigação excessiva com soro fisiológico 0,9%, curetagem, e logo após, sutura da mucosa com fio reabsorvível Vicryl 3-0 (Vicryl®/Ethicon — Johnson & Johnson, 3.0) (Figuras 3C e 3D).

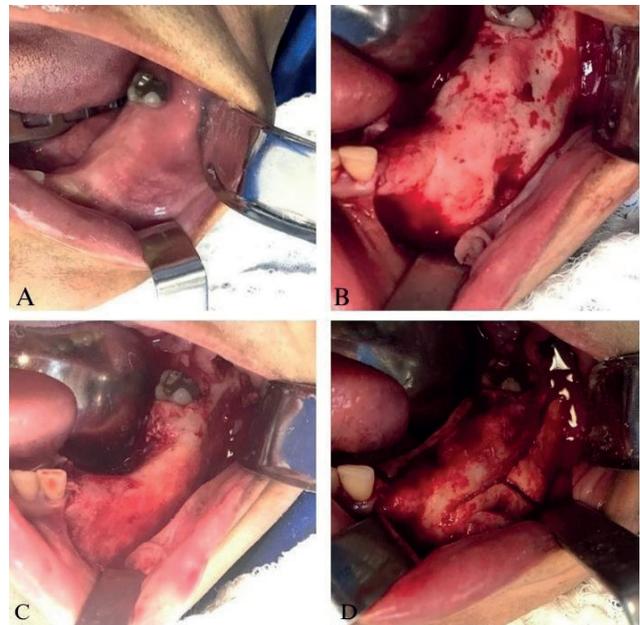


Figura 3 - A: Aspecto intra oral da lesão previamente à incisão; B: Trans-operatório, acesso à lesão; C: Trans-operatório, osteotomia; D: Trans-operatório, aspecto pós-osteoplastia.

Fonte: Autoria própria

Após a finalização do procedimento cirúrgico, paciente seguiu sob cuidados pós operatórios, recebendo alta após recuperação anestésica, foi prescrito o uso por via oral (VO) de Amoxicilina 500mg a cada 8 horas, durante 7 dias, Novalgina® 1g a cada 6 horas, durante os 4 primeiros dias.

Para auxílio da higienização, foi prescrito Clorexidina 0,2%, 2 vezes ao dia, durante 7 dias, com início no 2º dia do procedimento. Além disso, como terapia complementar, foi indicado o uso da crioterapia de forma contínua, a cada 2 horas, realizar posicionamento de gelo na face, para auxílio na regressão e controle de edema.

Foi realizado o envio do material para exame histopatológico, envolvido em solução de formalina foram enviados três segmentos ósseos irregulares, o maior medindo 3,5 x 2,5 x 0,6cm.

Ao exame histopatológico, em microscopia, a lesão apresentou abundante matriz fibrosa, frouxa, entremeada por trabéculas ósseas irregulares, de diferentes tamanhos e espessura, o laudo (Anexo 1) informa consistência para Displasia fibrosa, corroborando com a hipótese diagnóstica.

O paciente foi orientado sobre as consultas de retorno para acompanhamento pós cirúrgico, foram realizados exames radiográficos após 3, 6 e 12 meses, até o momento não foram observados quaisquer indícios de recidiva e o paciente segue sob acompanhamento semestral.

DISCUSSÃO

A displasia fibrosa (DF) é um tumor fibro-ósseo, de características benignas, foi associada ao aumento da reabsorção óssea através da ativação do osteoclasto e a deposição do tecido conjuntivo fibroso, ocasionado a substituição do tecido ósseo comum por tecido fibroso (1).

A DF pode ser limitada apenas em um osso, sendo classificada como monostótica, geralmente acomete de 70 a 85% dos casos, sendo responsável por 7% dos casos de tumores ósseos benignos. Porém, pode envolver mais de um osso, sendo denominada de displasia poliostótica, e quando associado a hiperpigmentação dérmica do tipo 'café-com-leite' e distúrbios endócrinos, é classificada como Síndrome de McCune Albright (MAS), apresentando prevalência entre 1.100.000 a 1.000.000. (1).

A DF Poliostótica juntamente com os distúrbios endócrinos podem ser diagnosticados em pacientes pediátricos, próximo dos 10 anos de idade. A DF é responsável por 2,5% de todos os tumores ósseos e de 5-7% de todos os tumores ósseos benignos, com envolvimento da região de cabeça e pescoço em 25% dos casos. (3)

Hanifi *et al.*, (2013), afirmam que a mandíbula e maxila são os ossos mais afetados da região maxilofacial, com maior prevalência na região posterior. O acometimento do osso frontal, esfenoide e etmoide é incomum, enquanto os ossos temporais e occipitais são os menos afetados. (3).

Para Kochanowski *et al.*, (2018) o envolvimento da maxila é duas vezes mais que a mandíbula, com maior acometimento na região posterior. (4).

Por se uma lesão assintomática e de progressão lenta, pode passar despercebida por vários anos, até que seja evidenciada a assimetria facial, aumento de volume ou também, o deslocamento de dentes. (7)

O diagnóstico é realizado a partir do histórico médico, exame físico e de imagem. Ao exame imagiológico, a DF apresenta-se como uma lesão rapidamente/hiperdensa, com características de vidro despolido e expansão da cortical óssea. (4).

O diagnóstico diferencial pode ser realizado de acordo com a extensão, localização e a idade de apresentação. Após a análise das imagens, deve ser avaliado a necessidade da realização de biópsia, levando em consideração os riscos e benefícios. (1).

Boyce *et al.*, (2016), destacaram que o tratamento conservador se torna primeira opção, contendo a osteotomia e osteoplastia do osso afetado como mais indicado. Porém, 68% dos pacientes com distúrbios endócrinos apresentaram recidiva, sendo recomendado o controle hormonal antes da realização do procedimento cirúrgico. Os tratamentos mais invasivos como as ressecções, apesar de apresentarem maior morbidade aparentam menor taxa de recidiva em comparação com procedimentos conservadores com taxas de 45% a 82%, respectivamente. (1).

A maior parte das lesões tendem a paralisar o crescimento após a puberdade, sendo o momento mais oportuno para realização de procedimentos cirúrgicos. O tratamento conservador torna-se o procedimento mais indicado, com contorno da lesão. Entretanto, em casos de lesões potencialmente expansíveis, em especial nos casos de DF Poliostótica onde há maior predisposição de recidiva, pode ser necessário a ressecção completa do osso afetado. (10)

Couturier *et al.*, (2017) relacionaram a recidiva com técnicas cirúrgicas inadequadas, necessitando de um diagnóstico completo, acompanhamento da lesão, estágio de evolução, e idade do paciente. (2).

Em relação ao tratamento, a primeira escolha para a DF na região de mandíbula e maxila, é o procedimento cirúrgico conservador pois devolve ao paciente função e estética em casos de assimetria facial, é realizada a osteotomia e osteoplastia dos ossos afetados, porém, ressalta-se que cirurgias conservadoras não se tem clareza do prognóstico da doença, não é incomum a recidiva da lesão necessitando de nova cirurgia. Todavia a ressecção total das lesões quando optada, pode comprometer a qualidade de vida, sendo menos indicada. (7)

Em estudo patológico retrospectivo incluindo casos de 2004 a 2016, Özşen *et al.*, (2018) investigaram casos de DF, e observaram ocorrências de recidiva onde o tratamento cirúrgico conservador foi escolhido, associando a remoção incompleta da lesão à restos celulares mutados com o gene *GNAS-1*, responsável por causar o desequilíbrio entre osteoblastos e osteoclastos. (8).

CONCLUSÃO

É consenso na literatura que a etiopatogenia da displasia fibrosa está relacionada a mutação genética do gene *GNAS-1*. Entretanto, não está claro os fatores que induzem a essa mutação. Por outro lado, ainda não é consenso dos autores a melhor opção de tratamento, porém, há destaque para o tratamento cirúrgico conservador, por ser uma alternativa que apresenta menor morbidade.

REFERÊNCIAS

1. Burke A, Collins M, Boyce A. Fibrous dysplasia of bone: craniofacial and dental implications. *Oral Diseases*. 2016 Set 1;23(6):697–708. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27493082/>
2. Couturier A, Aumaître O, Gilain L, Jean B, Mom T, André M. Craniofacial fibrous dysplasia: A 10-case series. *European Annals of Otorhinolaryngology, Head and Neck Diseases*. 2017 Set;134(4):229–35. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28302454/>
3. Hanifi B, Samil KS, Yasar C, Cengiz C, Ercan A, Ramazan D. Craniofacial fibrous dysplasia. *Clinical Imaging*. 2013 Nov;37(6):1109–15. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/23993753/>
4. Kochanowski NE, Badry MS, Abdelkarim AZ, Lozanoff S, Syed AZ. Radiographic Diagnosis of Fibrous Dysplasia in Maxilla. *Cureus*. 2018 Ago 10;10(8):3127. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/30345186/>
5. Mainville G, Turgeon D, Kauzman A. Diagnosis and management of benign fibro-osseous lesions of the jaws: a current review for the dental clinician. *Oral Diseases*. 2016 Ago 1;23(4):440–50. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/27387498/>
6. Neville BW, Al E. *Patologia oral e maxilofacial*. Rio De Janeiro (RJ): Elsevier; 2016.
7. Ni Y, Yang Z, Xu H, Lu P, Wang W, Liu F. Assessment of preoperative and postoperative quality of life of 24 patients with fibrous dysplasia of the mandible. *Br J of Oral and Maxillofac Surg*. 2019 Ago 26;57(9):913–7. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31466801/>
8. Özşen M, Yalçinkaya U, Bilgen MS, Yazici Z. Fibrous dysplasia: clinicopathologic presentation of 36 cases. *Turk Patoloji Derg* 2018;34(3):234–41. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/29744853/>
9. Pacino GA, Cocuzza S, Tonoli G, Rizzo PB, Tirelli G, Tofanelli M, et al. Jawbone fibrous dysplasia: retrospective evaluation in a cases series surgically treated and short review of the literature. *Acta Biomed*. 2020 Out 13;92(1):e2021018–8. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/33682826/>
10. Pinho RFC, Estudo retrospectivo entre o fibroma ossificante, displasia fibrosa, displasia cemento-ossificante e lesões centrais de células gigantes. 2018 Aug 17. <https://teses.usp.br/teses/disponiveis/23/23154/tde-15082018-094840/pt-br.php>