

# Fibroma osificante de mandíbula: presentación de un caso y revisión de la literatura

## *Mandibular ossifying fibroma: case report and literature review*

A. Lombardi<sup>1</sup>, M. Cerullo<sup>2</sup>, J.C. Garzón<sup>2</sup>, J. Martínez<sup>3</sup>, E. Cuella<sup>4</sup>

**Resumen:** Dentro de las lesiones fibro-óseas benignas se encuentra el fibroma osificante (FO); esta entidad se considera una verdadera neoplasia que comprende una proliferación encapsulada de tejido fibroso; que afecta generalmente a los maxilares especialmente a la mandíbula en la región de molas. Su crecimiento es lento, pudiendo generar el desplazamiento dentario, incluso la rizólisis de los mismos.

Para el diagnóstico de FO se requiere de la correlación clínica-radiológica, con los hallazgos intraoperatorios; ya que la histología puede presentar similitudes con otras lesiones fibro-óseas.

Se describe el caso de un paciente tratado en nuestro servicio por fibroma osificante de maxilar inferior.

**Abstract:** The benign fibro-osseous lesions include ossifying fibroma (OF). This condition is considered to be a true neoplasm consisting of an encapsulated proliferation of fibrous tissue that generally affects the jaws, especially the molar region of the mandible. Its growth is slow and it can cause tooth displacement, including dental rhizolysis.

In order to reach the diagnosis of OF, a clinico-radiologic correlation with intraoperative findings is required because the histology may be similar to other fibro-osseous lesions.

The case of a patient treated in our department for ossifying fibroma of the mandible is reported.

**Key words:** Ossifying fibroma; Benign fibro-osseous lesions

**Palabras clave:** Fibroma osificante; Lesiones fibro-óseas benignas.

Recibido: 09.06.08

Aceptado: 17.12.08

<sup>1</sup> Jefe de división. Especialista en Cirugía y Traumatología Buco-Máximo-Facial

<sup>2</sup> Especialista en Cirugía y Traumatología Buco-Máximo-Facial

<sup>3</sup> Jefe de residentes

<sup>4</sup> Residente

Servicio de Cirugía y Traumatología Buco-Máximo-Facial.

Hospital General de Agudos P. Piñero. Argentina

### **Correspondencia:**

Dr. Antonio Lombardi

Servicio de Cirugía y Traumatología Buco-Máximo-Facial

Hospital General de Agudos P. Piñero

Varela 1301 (Flores) c.p: 1406. Buenos Aires. Argentina

## Introducción

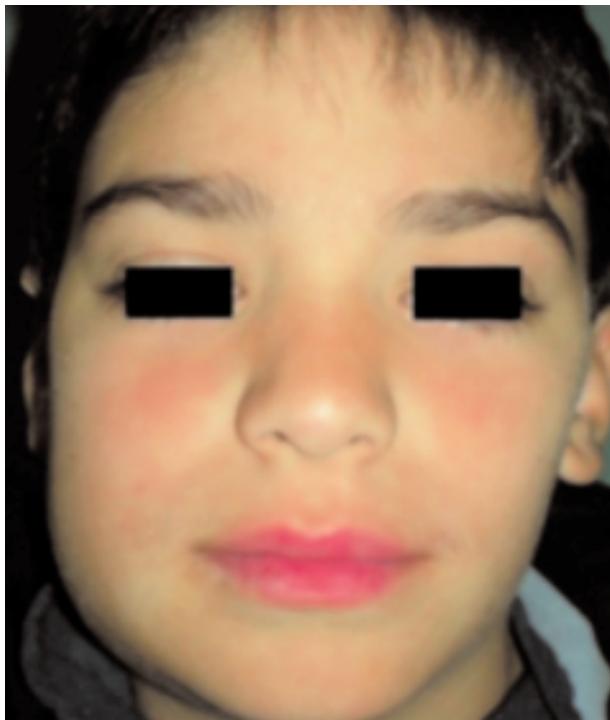
Las lesiones fibro-óseas benignas abarcan un grupo de patologías de desórdenes óseos clínicamente diversos que comparten características histopatológicas. Es característico a este grupo el reemplazo de un hueso normal por un tejido compuesto de fibras colágenas, fibroblastos y un grado variable de tejido mineralizado.

En cuanto a la clasificación de estas lesiones numerosos modelos han sido propuestos, de los cuales el más reconocido y aceptado ampliamente es el de Waldrom; quien divide a las lesiones fibro-óseas benignas en distintas categorías: 1) de desarrollo (hamartomatoso), 2) reactivas (displásicas) y 3) neoplásicas. Recientemente, Slater, Slootweg, Eversole y Melrose han realizado recomendaciones y modificaciones a la clasificación propuesta por Waldron.<sup>1</sup> La siguiente categorización es sugerida.

## Lesiones fibro-óseas benignas (modificada)

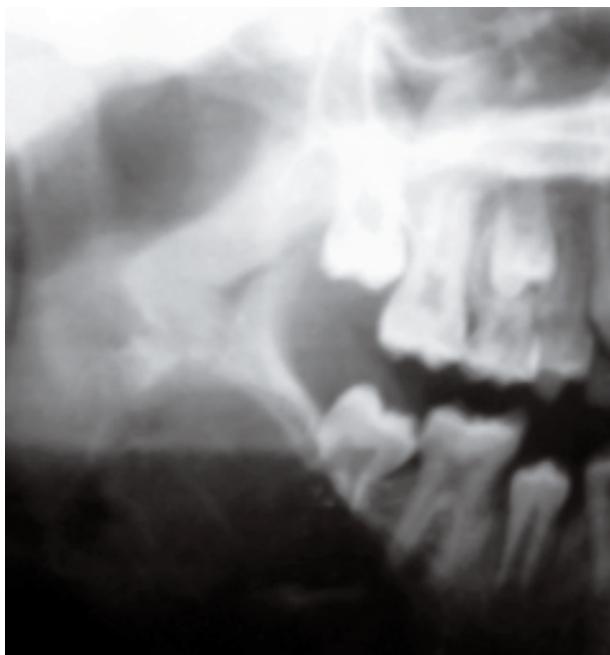
1. Displasia ósea
  - No hereditaria:
    - Periapical
    - Focal
    - Florida
  - Hereditaria:
    - Cementoma gigantiforme familiar
2. Neoplasias fibro-óseas
  - Fibroma osificante convencional
  - Fibroma osificante "juvenil", "activo" o "agresivo"
3. Displasia fibrosa
  - Poliostótica por endocrinopatía (McCune-Albright)
  - Poliostótica
  - Craneofacial

La OMS clasifica al FO como una neoplasia ósea benigna con afección al esqueleto craneofacial, de mayor incidencia en los maxilares; descrito también en hueso temporal, etmoidal y región orbitaria. Se presenta generalmente entre la 2<sup>a</sup> y 4<sup>a</sup> década de vida, con predilección al sexo femenino. Generalmente asintomático, siendo la deformidad facial su primera manifestación clínica.<sup>2</sup>



**Figura 1.** Vista frontal del paciente, se puede observar la tumefacción en región mandibular, lado derecho.

*Figure 1. Frontal view of patient in which right mandibular swelling is evident.*



**Figura 2.** Aspecto ortopantomográfico donde se aprecia lesión unilocular y reabsorción radicular de segundo molar.

*Figure 2. Orthopantomographic view revealing a unilocular lesion and radicular resorption of the second molar.*

## Introduction

Benign fibro-osseous lesions include a group of clinically diverse bone disorders that share histopathologic characteristics. The replacement of normal bone by tissue composed of collagen fibers, fibroblasts, and a variable degree of mineralized tissue is characteristic of this group. Numerous classification models of these lesions have been proposed, of which the most widely recognized and accepted classification is that of Waldron. This author divides benign fibro-osseous lesions into different categories: 1) developmental (hamartomatous), 2) reactive (dysplastic), and 3) neoplastic. Recently, Slater, Slootweg, Eversole, and Melrose have made recommendations and modifications to the classification proposed by Waldron.<sup>1</sup> The following categorization is proposed:

## Benign fibro-osseous lesions (modified)

1. Bone dysplasia
  - Nonhereditary:
    - Periapical
    - Focal
    - Florid
  - Hereditary:
    - Familial gigantiform cementoma
2. Fibro-osseous neoplasms
  - Conventional ossifying fibroma
  - Juvenile, active, or aggressive ossifying fibroma
3. Fibrous dysplasia
  - Polyostotic fibrous dysplasia due to endocrine disease (McCune-Albright)
  - Polyostotic fibrous dysplasia
  - Craniofacial fibrous dysplasia

• *Craniofacial fibrous dysplasia*

Radiográficamente se presenta, en la mayoría de los casos, una lesión circunscrita con borde esclerótico y unilocular, aunque han sido reportados FO multiloculares. La apariencia depende de la madurez de la lesión, pudiendo ser radiolúcida, radioopaca o mixta.<sup>3</sup>

Los hallazgos histopatológicos incluyen tejido conectivo fibroso denso con grados variables de celularidad. El estroma es relativamente hipovascular pudiendo observarse algunas vénulas ovoides. El hueso es metaplásico con un trabeculado laminar que puede estar presente pero no es un hallazgo constante.<sup>4-5</sup>

El tratamiento consiste en la completa escisión quirúrgica, con bajo porcentaje de recidiva.

Se describe una variante de FO que afecta a niños y adolescentes, con mayor complejidad en los hallazgos histopatológicos y con tendencia al crecimiento agresivo: El fibroma osificante juvenil agresivo (FOJA). La OMS define al FOJA como una lesión ósea de crecimiento activo que afecta a los individuos menores de 15 años; de mayor predilección por el maxilar superior, y compuesto por tejido fibroso con rica celularidad, principalmente fibroblastos y osteoblastos, pudiéndose visualizar osteoclastos en relación al tejido óseo. A su vez, describen dentro del mismo dos variedades histológicas: 1)Trabecular- desmoosteoblastoma y 2) Psammomatoide-desmoosteoblastoma.<sup>6</sup>

El tratamiento es quirúrgico siendo de elección el curetaje. Posee una tasa de recidiva del 30 al 58%.<sup>7</sup>

## Caso clínico

Paciente de sexo masculino, de 10 años de edad, derivado al Servicio de Cirugía Buco-maxilofacial del Hospital Piñero para ser valorado por un aumento de volumen en región de ángulo mandibular derecho de dos semanas de evolución; sin antecedentes médicos de interés. La tumefacción era no dolorosa a la palpación y no había relato de parestesia (Fig. 1).

Al examen intraoral se apreció abombamiento de la tabla vestibular y lingual del maxilar inferior. Las piezas dentarias se obser-



Figura 3. TAC helicoidal.Corte coronal  
Figure 3. Helical CAT. Coronal slice.



Figura 4. Visión intraoperatoria de la exéresis del tumor con conservación del nervio dentario inferior.  
Figure 4. Intraoperative view of tumor resection with conservation of the inferior dental nerve.



Figura 5. Vista macroscópica de la pieza quirúrgica.  
Figure 5. Gross view of surgical piece.

The World Health Organization (WHO) classifies OF as a benign bone neoplasm of the craniofacial skeleton. It most frequently occurs in the jaw, but it also has been reported in the temporal and ethmoidal bones and orbital region. It generally presents between the second and fourth decades of life, more frequently in women. It is usually asymptomatic and facial deformity is the first clinical manifestation.<sup>2</sup>

Radiographically, a circumscribed unilocular lesion with a sclerotic margin appears in most cases, although multilocular OF has been reported. The appearance of the lesion depends on its maturity and may be radiolucent, radioopaque, or mixed.<sup>3</sup> The histopathologic findings include dense fibrous connective tissue with variable degrees of cellularity. The stroma is relatively hypovascular and ovoid venules are visible. The bone is metaplastic and laminar trabeculae may be present but are not a constant finding.<sup>4,5</sup> Treatment is complete surgical excision and the recurrence rate is low.

An OF variant has been described that affects children and adolescents. Its histopathologic characteristics are more complex and its growth tends to be aggressive: Aggressive juvenile ossifying fibroma (AJOF). The WHO defines AJOF as an actively growing bone lesion that affects people under the age of 15 years. It shows more predilection for the maxilla and consists of richly cellular fibrous tissue containing mainly fibrocytes and osteoblasts; osteoclasts are visualized in relation to the bone tissue. Two histologic varieties are described: 1) trabecular-desmo-osteoblastoma and

taining mainly fibrocytes and osteoblasts; osteoclasts are visualized in relation to the bone tissue. Two histologic varieties are described: 1) trabecular-desmo-osteoblastoma and

vaban sanas y sin movilidad; la mucosa de aspecto normal.

Radiográficamente se observó una lesión radiolúcida, unilocular de bordes escleróticos. También se evidenció reabsorción radicular de la pieza 37 (Figs. 2 y 3).

El resultado de la biopsia fue fibroma osificante, por lo cual se programó la enucleación de la lesión bajo anestesia general. La anatomía patológica confirmó el resultado de fibroma osificante (Figs. 4 y 5).

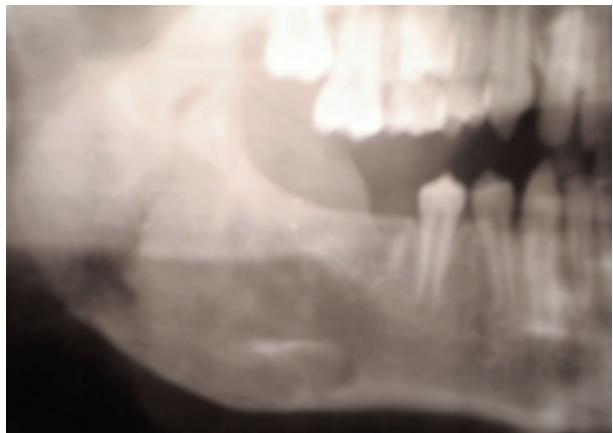
El último control clínico-radiográfico se efectuó a los ocho meses, con una evolución buena y una evidencia radiográfica de neoformación ósea, y aumento de grosor de la basal mandibular. El paciente permanece en seguimiento para descartar recidiva del tumor. (Figs. 6 y 7).

## Discusión

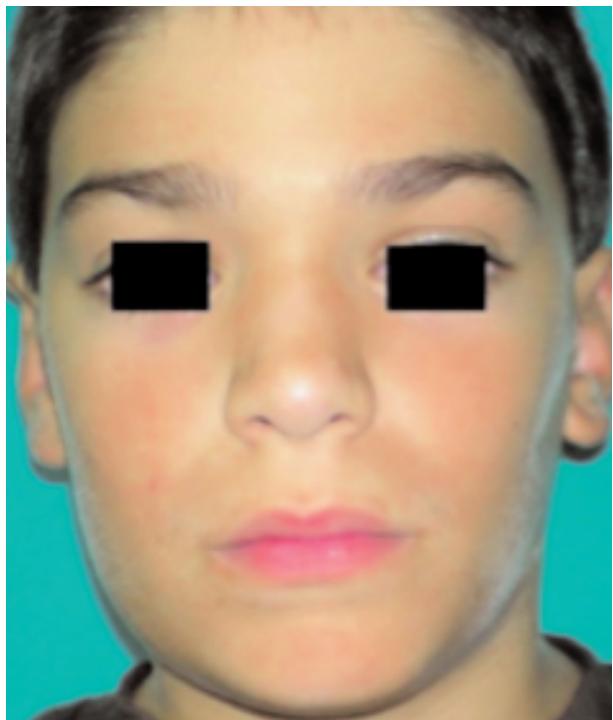
El fibroma osificante, termino propuesto por Montgomery en 1927, ha sido y sigue siendo motivo de controversia en varios aspectos: Uno de ellos es la diferenciación del FO con lesiones de aspecto tanto clínico como histológicos similares; como es el caso de la displasia fibrosa (DF) y la displasia ósea focal (DOF). La importancia del diagnóstico diferencial del FO con estas lesiones benignas radica en el distinto tratamiento que debe recibir cada una de estas patologías.<sup>1</sup>

Lo que diferencia a estas lesiones es que el FO tiene un patrón de crecimiento centrífugo causando generalmente el borramiento de la basal mandibular, produciendo desplazamiento dentario y/o reabsorción radicular.<sup>8</sup> Los hallazgos intraoperatorios son en muchos casos significativos y de valor diagnóstico ya que el FO tiende a enuclearse intacto como una masa sólida. Las biopsias que preservan relación entre la cortical y la lesión son de valor en la interpretación histológica de dichas entidades; siendo la evidencia microscópica de demarcación clave en la diferenciación de FO, DF y DOF.<sup>9</sup>

Otro punto de controversia es la diferenciación de una variedad "agresiva" o "juvenil" dentro de la misma entidad. Los patólogos consideran este diagnóstico como subjetivo y arbitrario, sin respaldo científico.<sup>10</sup> El FOJA es considerado por muchos como una lesión única que se presenta en chicos o adolescentes, con



**Figura 6.** Control radiológico a los 8 meses  
**Figure 6.** Radiographic follow-up at 8 months.



**Figura 7.** Vista frontal del último control clínico a los ocho meses.  
**Figure 7.** Frontal view of the most recent clinical follow-up at eight months.

2) psammomatoid-desmoplastic osteoblastoma.<sup>6</sup>

The treatment of choice is surgical curettage. The recurrence rate is 30 to 58%.<sup>7</sup>

## Clinical case

A 10-year-old male was referred to the Bucco-Maxillo-Facial Surgery Department of Hospital Piñero for study of an increase in the volume of the right mandibular angle over a two-week period. He had no medical history of interest. The mass was not tender and there was no paresthesia (Fig. 1). The intraoral examination disclosed swelling of the vestibular and lingual table of the mandible. The dental pieces were apparently healthy and showed no mobility; the mucosa was of normal appearance. Radiographically, the lesion was radiolucent and unilocular with sclerotic margins. Radicular resorption of piece 37 was evident (Figs. 2 and 3). Biopsy findings were consistent with ossifying fibroma, for which enucleation under general anesthesia was scheduled. Histopathologic study confirmed the ossifying fibroma (Figs. 4 and 5).

The most recent clinical and radiographic follow-up at eight months revealed favorable evolution of the patient and radiographic evidence of bone neoformation and increased basal mandible thickness. The patient continues under follow-up to detect tumor recurrence (Figs. 6 and 7).

## Discussion

Ossifying fibroma, a term proposed by Montgomery in 1927, has been and continues to be a controversial topic in several ways: One point of controversy is the differentiation between OF and lesions of similar clinical and

**Tabla 1.** Diagnóstico diferencial del fibroma osificante

	<b>Edad y genero</b>	<b>Hallazgos clínico</b>	<b>Hallazgos radiológicos</b>	<b>Localización</b>	<b>Hallazgos histopatológicos</b>	<b>Tratamiento</b>
Fibroma osificante	Segunda y cuarta décadas de la vida predominan en sexo femenino	Crecimiento lento asintomático Asimetría facial	Borde esclerótico, unilocular radiolúcida, mixta o radiopaca. Produce desplazamiento de elementos dentarios vecinos, pudiendo producir la reabsorción de los mismos	Craneofacial con mayor incidencia en mandíbula región de molares y premolares	Tejido conectivo fibroso denso con grados variables de celularidad. Es frecuente la hipercelularidad con numerosos fibroblastos Variable hueso metaplásico.	Exéresis
Displasia fibrosa	Inicia en los primeros años de vida pero se manifiesta en la adolescencia y adultez. Más frecuentes en mujeres que en hombres	Crecimiento lento asintomático Monostótica: afecta a solo un hueso Poliostótica: afecta a más de un hueso	Bordes irregulares y difusos. Grados variables de radiolucidez y radiopacidad	Huesos del esqueleto cráneo facial. Más frecuente en el maxilar que en la mandíbula	Variedad de patrones, campos de predominio collagenoso y osteoide, otros completamente osificados y calcificados	Remodelación Cosmética
Displasia ósea focal	Predomina en mujeres, raza negra	Lesión indolora de crecimiento lento	Lesiones radiolúcidas con opacidades	Maxilar inferior región de premolares	Hueso trabecular o laminar con calcificaciones ovales en un estroma fibroso	Control

**Table 1.** Differential diagnosis of ossifying fibroma

	<b>Age and gender</b>	<b>Clinical findings</b>	<b>Radiologic findings</b>	<b>Location</b>	<b>Histopathologic</b>	<b>Treatment</b>
Ossifying fibroma	Second and fourth decades of life. Predominant in women	Slow asymptomatic growth. Facial asymmetry	Sclerotic margin, unilocular, radiolucent, mixed or radiopaque. Produces displacement and resorption of neighboring teeth	Craniofacial, greater incidence in molar and premolar mandibular region	Dense fibrous connective tissue with variable cellularity. Hypercellularity with numerous fibroblasts is frequent. Variable metaplastic bone	Resection
Fibrous dysplasia	Begins in the first years of life but is manifested in adolescence and adulthood. More frequent in women than in men	Slow asymptomatic growth. Monostotic: affects only one bone. Polyostotic: affects more than one bone	Irregular and diffuse margins. Variable degrees of radiolucency and radiopacity	Bones of the craniofacial skeleton. More frequent in maxilla than in mandible	Variety of patterns, fields of collagenous and osteoid predominance, others completely ossified and calcified	Cosmetic remodeling
Focal osseous dysplasia	Predominant in women and blacks	Painless, slow-growing lesion	Radiolucent lesions with opacities	Premolar mandibular region	Trabecular or laminar bone with oval calcifications in fibrous stroma	Follow-up

características histológicas más complejas y con tendencia a un comportamiento agresivo;<sup>11</sup> sin embargo, en lo documentado sobre esta entidad se establece que:

- No todos se presentan en niños y adolescentes.
- No todos tienen comportamiento local agresivo
- No todas las lesiones reportadas como FOJA tienen las mismas características histológicas.

El dilema es: ¿Cómo distinguir estas variedades agresivas del FO convencional?

Lo cierto es que este diagnóstico es confuso y controversial debido a que el FO puede alcanzar tamaños considerables y no distinguirse histológicamente de aquellos de crecimiento más limitado. Además, las características histológicas que supuestamente apartaban al FOJA, como por ejemplo un estroma extremadamente celular, pueden variar de un tumor a otro y las mismas pueden ser observadas en FO convencionales.<sup>12</sup> El tejido mixoide, la degeneración quística y el hueso aneurismal, no son específicos del FOJA, pudiendo ser simplemente cambios reaccionales.<sup>13</sup>

## Conclusión

El correcto manejo del FO implica en primer lugar el diagnóstico diferencial con DF y DOF; debido a los distintos tratamientos que cada una de estas patologías ameritan.

El tratamiento de elección del FO es la escisión del tumor y posterior seguimiento como lo realizado en el caso presentado, mientras que la DOF requiere solamente control; y DF en algunos casos la remodelación cosmética.

En cuanto a la diferenciación de una variedad juvenil agresiva, no existe por el momento consenso entre los patólogos para definir el criterio exacto de esta entidad; considerándose lo más prudente individualizar cada caso en particular y recalcar en algunos las características histológicas que puedan relacionarse con un comportamiento local agresivo.

Teniendo en cuenta que el tratamiento indicado para cualquier tipo de FO es la escisión quirúrgica y posterior seguimiento; es en gran medida irrelevante la necesidad del diagnóstico de FOJA.

## Bibliografía

1. Bannon R, Fowler C. Benign Fibro-osseous Lesions: A review of current concepts. *Adv Anat Pathol* 2001;8:126-43.
2. Gay Escoda C, Berini AL. Fibroma osificante maxilar: Presentación de un caso y revisión de la literatura. *Med Oral* 2004;9:333-9.
3. Eversole LR, Merrell PW, Strub D. Radiographic characteristics of central ossifying fibroma. *Oral Surgery Oral Med Oral Pathol* 1985;59:7-522.
4. Sciubba JJ, Younai F. Ossifying fibroma of the mandible and maxilla: review of 18 cases. *J Oral Pathol Med* 1989;18:21-315.
5. Waldron CA, Giansanti JS. Benign fibro-osseous lesions of the jaws: a clinical -radiologic-histologic review of sixty-five cases. Part II Benign fibro-osseous lesions of periodontal ligament origin. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1973; 35:50-340.

*histologic appearance, such as fibrous dysplasia (FD) and focal osseous dysplasia (FOD). The importance of the diagnosis differential of OF with these benign lesions lies in the different treatment that each of these pathologies receives.<sup>1</sup>*

*What differentiates these lesions is that OF has a centrifugal growth pattern, generally erasing the basal mandible and producing dental displacement and/or radicular resorption.<sup>8</sup> The intraoperative findings often are significant and have diagnostic value since OF tends to be enucleated intact as a solid mass. Biopsies that preserve relation between the cortical and the lesion are valuable for the histologic interpretation of these pathologies. The microscopic evidence of the margin is the key to differentiating OF, FD, and FOD.<sup>9</sup>*

*Another point of controversy is the differentiation of an aggressive, or juvenile, variant of the same pathology. Pathologists consider this diagnosis as subjective, arbitrary, and lacking in scientific support.<sup>10</sup> Many authors consider AJOF to be a unique lesion that occurs in boys or adolescents and has more complex histologic characteristics and a tendency to behave aggressively.<sup>11</sup> Nevertheless, reports on this pathology have established:*

- Not all lesions described as AJOF occur in children and adolescents.
- Not all have aggressive local behavior.
- Not all lesions reported as AJOF have the same histologic characteristics.

*The problem is distinguishing these aggressive varieties from conventional OF.*

*What is certain is that this diagnosis is confusing and controversial because OFs can grow to a considerable size and may not be histologically distinguishable from those with more limited growth. In addition, the histologic characteristics that supposedly separated AJOF, such as extremely cellular stroma, can vary from one tumor to another and the same characteristics can be observed in conventional OF.<sup>12</sup> Myxoid tissue, cystic degeneration, and aneurysmal bone are not specific to AJOF; they may occur as reactive changes.<sup>13</sup>*

## Conclusion

*The correct management of OF first requires a differential diagnosis with FD and FOD due to the different treatment that each of these conditions requires.*

*The treatment of choice of OF is tumor resection and follow-up, as was applied to the case presented here. FOD requires only follow-up and FD sometimes requires cosmetic surgery.*

*As for differentiating an aggressive juvenile variety, no consensus exists among pathologists on the exact criterion for defining this pathology. It is considered more prudent to individualize each particular case and highlight the histo-*

6. Kramer Irh, Pindborg JJ, Shear M. *Histological typing of odontogenic tumors*. In: WHO International Histological classification of tumors. 2nd ed. Berlin: Springer-Verlag 1992:9-27.
7. Slootweg PJ, Panders AK, Koopmans R, et al. Juvenile ossifying fibroma. An analysis of 33 cases with emphasis on histopathologic aspects. *J Oral Pathol Med* 1994; 23:8-385.
8. Slater LJ. Fibro-osseous lesions. *Oral and Maxillofacial Surgery knowledge Update* 1995;1(Part II):33-47.
9. Eversole LR. *Clinical outline of oral pathology: diagnosis and treatment*. 3rd ed. Philadelphia: Lea & Febiger 1992:436.
10. Sapp JP, Eversole LR, Wysocki GP. *Contemporary oral and maxillofacial pathology*. St. Louis: Mosby, 1997;88-125.
11. Slootweg PJ. Maxillofacial fibro-osseous lesions: classification and differential diagnosis. *Semin Diagn Pathol* 1996;13:12-102.
12. Eversole LR. Craniofacial fibrous dysplasia and ossifying fibroma. *Oral Maxillofacial Surg Clin North Am* 1997;9:42-625.
13. Melrose RJ. The clínico-pathologic spectrum of cemento-osseous dysplasia. *Oral Maxillofacial Surg Clin North Am* 1997;9:53-643.

*logic characteristics that may be related to aggressive local behavior in some of these cases.*

*Considering that the treatment indicated for any type of OF is surgical resection and follow-up, diagnosing AJOF is not particularly irrelevant.*