



Caso clínico

Planeación virtual y modelo 3D para reconstrucción mandibular por fibroma osificante subtipo psamomatoide: reporte de caso clínico

Virtual planning and 3D model for mandibular reconstruction due to psamomatoid subtype ossifying fibroma: clinical case report

Jorge Luis Cabrera Sandoval,* José Leandro Ernesto Lucio Leonel,‡
Richael Antonio Silva Suárez,§ Andrés Alberto Ayala Sardua[¶]

RESUMEN

Introducción: existen varias lesiones que se han clasificado como lesiones fibroósas (displasia fibrosa, osteomielitis esclerosante y el fibroma osificante o cementificante). Estas entidades presentan un estroma fibroblástico vascular y producen una matriz calcificada que comprende el hueso y el cemento. El fibroma osificante (fibroma cementificante, fibroma cemento osificante) de etiología incierta se caracteriza por mostrar un crecimiento lento y aumento de volumen deformante con una incidencia mayor en la mandíbula, pudiendo provocar desplazamiento de los órganos dentarios. En el estudio de imagen se observa un área hipodensa y unilocular, presentando en algunos casos diversos grados de hiperdensidad. **Objetivo:** se describe caso clínico de

ABSTRACT

Introduction: there are several lesions that have been classified as fibro-osseous lesions (fibrous dysplasia, sclerosing osteomyelitis and ossifying or cementifying fibroma). These entities present a vascular fibroblastic stroma and produce a calcified matrix comprising bone and cementum. The central ossifying fibroma (cementifying fibroma, cement-ossifying fibroma) of uncertain etiology, is characterized by slow growth and increased deforming volume with a greater incidence in the jaw, and may cause displacement of the dental organs. In the imaging study, a hypodense and unilocular area is presented, presenting in some cases various degrees of hyperdensity. **Objective:** we describe the case of an 18-year-old male with a diagnosis of psamomatoid subtype ossifying fibroma that

* Residente de tercer año, Especialidad de Cirugía Oral y Maxilofacial, Escuela Nacional de Estudios Superiores, Unidad León, Guanajuato, México.

‡ Cirujano Oral y Maxilofacial. Jefe de Servicio de Cirugía Maxilofacial, Escuela Nacional de Estudios Superiores, Unidad León, Guanajuato, México.

§ Cirujano Oral y Maxilofacial. Médico adscrito al Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital General de León, Guanajuato, México.

¶ Cirujano Oral y Maxilofacial. Médico adscrito al Servicio de Cirugía Maxilofacial, Escuela Nacional de Estudios Superiores, Unidad León, Guanajuato, México.

Correspondencia:

Jorge Luis Cabrera Sandoval

E-mail: drjorgeluis Cabrera@gmail.com



paciente masculino de 18 años con diagnóstico de fibroma osificante subtipo psamomatoide que afecta la región izquierda mandibular. Se hace una descripción de las características clínicas, imagenológicas e histopatológicas y se detalla el flujo de trabajo en la planificación virtual y técnica quirúrgica realizada.

Palabras clave: planeación virtual, fibroma osificante, subtipo psamomatoide, caso clínico.

affects the left mandibular region, presenting its clinical, radiographic, and histological characteristics. Although surgery is the treatment of choice; virtual planning and the 3D printing model for reconstruction are useful tools in the management of this pathology.

Keywords: 3D planning, ossifying fibroma, psammomatoid subtype, case report.

INTRODUCCIÓN

El fibroma osificante fue descrito por Menzel en 1872. Sin embargo, en 1927 el término fibroma osificante fue utilizado por primera vez por Montgomery, nombre por el cual actualmente se reconoce a la lesión.¹ Hasta 1948 se pensó que la displasia fibrosa y el fibroma osificante eran la misma entidad o que una era la variante de la otra. Sherman y Sternberg hacen una descripción detallada de los aspectos clínicos, histológicos y de imagen del fibroma osificante considerados como entidades clínicas diferentes.

La Organización Mundial de la Salud (OMS) en 1972 la clasificó en dos tipos como fibroma osificante y fibroma cementante, pero en 1992 se denominó como fibroma cemento osificante.² Posteriormente, en 2005 se reemplazó por el término de «fibroma osificante» y en 2017 se describió en la clasificación de los tumores de cabeza y cuello de la Organización Mundial de la Salud (OMS).^{2,3}

El fibroma osificante es una neoplasia ósea benigna característica del esqueleto craneomaxilofacial, constituida por tejido conectivo fibroso con cantidades variables de hueso metaplásico y tejido mineralizado. Por lo general es una lesión encapsulada, lo que la distingue de la displasia fibrosa, que puede adoptar un aspecto clínico y patológico similar.^{1,2,4-6} Se localiza principalmente en los maxilares, aunque se puede encontrar en otros huesos como en el temporal, frontal, esfenoides y etmoides. Algunos autores reportan como factor etiológico un traumatismo previo en la zona, periodontitis o la realización de una exodoncia como posibles factores responsables. Otros autores sugieren que los fibromas osificantes y/o cemento osificante son lesiones fibroósicas con origen en el ligamento periodontal, por lo que se consideran variaciones histológicas.^{6,7}

Imagenológicamente se observa una lesión circunscrita que aparece al inicio como una imagen hipodensa para transformarse paulatinamente en

una lesión mixta, alcanzando un aspecto hiperdenso, y en un gran número de casos está asociada con expansión de corticales óseas.^{2,4-6}

Histológicamente consiste en tejido fibroso, el cual presenta varios grados de celularidad con contenido de material mineralizado. La porción de tejido duro se encuentra de forma trabecular, osteoide, de hueso o de esferas celulares basofílicas que son similares al cemento; encontrar dos de estas presentaciones es usual en el estudio histológico. El trabeculado óseo varía en tamaño y con frecuencia muestra una mezcla de patrones lamelares y entrelazados, se observa principalmente en la periferia osteoblástica y osteoide. La variación en los tipos de material mineralizado ayuda a distinguir el fibroma osificante de la displasia fibrosa, la cual tiene un patrón más uniforme de diferenciación ósea.^{8,9}

El presente artículo expone el caso clínico de paciente masculino con diagnóstico de fibroma osificante mandibular de subtipo psamomatoide, hace una descripción de las características clínicas, imagenológicas e histopatológicas y detalla el flujo de trabajo en la planificación virtual y técnica quirúrgica realizada.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente masculino de 18 años originario y residente de León, Guanajuato, México, quien acude al Servicio Urgencias del Hospital General de León, siendo referido por médico general como proceso infeccioso de dos años de evolución, tratado con múltiples esquemas antimicrobianos sin tener resolución. A su ingreso se solicita interconsulta con el servicio de cirugía maxilofacial por presentar un aumento bucal de dos años de evolución, sin evidencia de antecedentes contribuyentes a su padecimiento en la historia clínica. A la exploración clínica se observa un aumento de volumen en la región geniana y submandibular izquierda, de consistencia firme, fija a planos profundos, indurado, sin cambios de

coloración, con un tamaño aproximado de 5×5 cm (Figura 1A).

Intraoral se observó aumento de volumen en fondo de vestíbulo en región de premolares y molares izquierdos mandibulares con mucosa de caracterís-

ticas normales al tejido adyacente y a la palpación la zona se encontró indurada en la región afectada, presentándose desde el canino inferior izquierdo hasta región de tercer molar inferior ipsilateral no erupcionado (Figura 1B).



Figura 1: A) Foto extraoral en la que se observa aumento de volumen en región geniana y submandibular izquierda aumento de volumen de 7×7 aproximadamente. B) Fotografías intraorales en las que se observa expansión de corticales en región de premolares y molares izquierdos mandibulares.

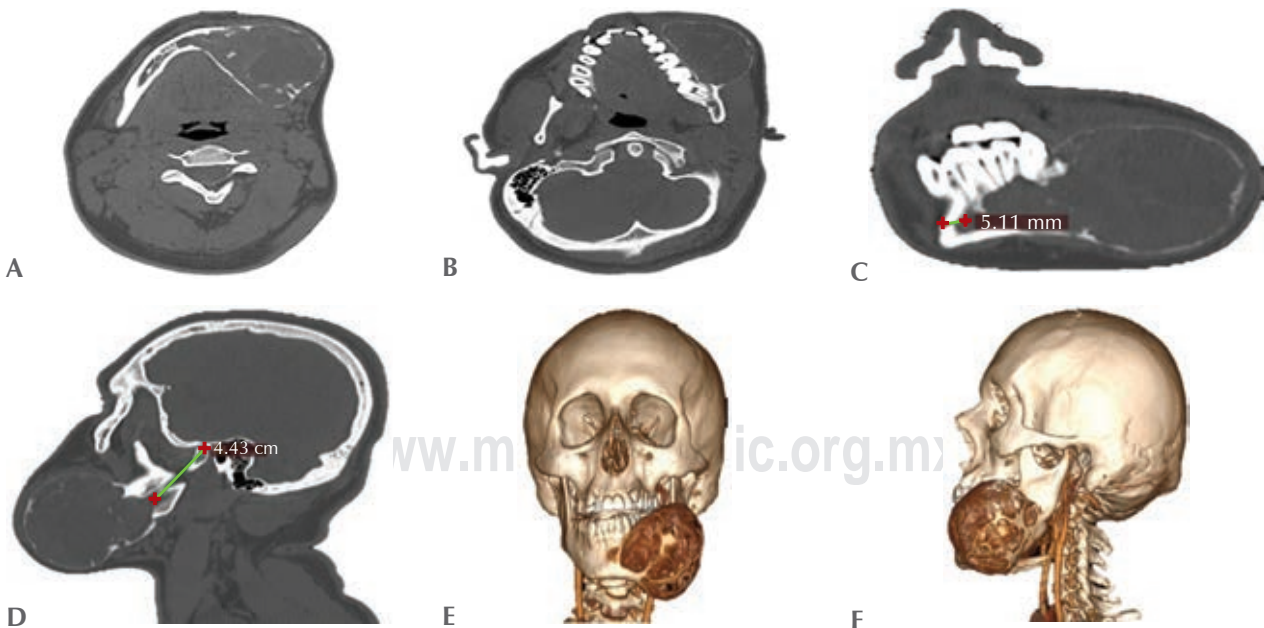


Figura 2: A-D) Imágenes de la TC donde se observa la extensión y las dimensiones de la lesión con la expansión de las corticales y las radioopacidades en el interior de la lesión. En el corte coronal y sagital se toman medidas al agujero mentoniano derecho y al cóndilo izquierdo respectivamente para la planificación de la resección de la lesión. E, F) Reconstrucción 3D de TC contrastada en fase arterial.

Se realizó tomografía computarizada (TC) de cráneo, macizo facial y cuello simple y contrastada, observándose un aumento de volumen con densidad mixta delimitada por un halo hiperdenso, involucrando desde apical del canino inferior derecho hasta distal del tercer molar inferior contralateral, con expansión de corticales (*Figura 2A y B*). En el corte coronal y sagital se toman medidas al agujero mentoniano derecho y al cóndilo izquierdo respectivamente para la planificación virtual de la resección de la lesión (*Figura 2C-F*). Dentro del diagnóstico diferencial se incluyeron: odontoameloblastoma, tumor odontogénico epitelial calcificante, fibroma osificante, displasia fibrosa, cementoma gigantiforme, osteoblastoma y osteosarcoma de bajo grado.

Bajo anestesia local (xilocaína al 2% y epinefrina 1:100,000) se procedió a realizar la toma de biopsia incisional para su estudio macroscópico y microscópico resultando fibroma osificante central.

Se realizó la impresión de modelo anatómico 3D de la lesión y otro modelo mandibular con efecto de espejo, dejando el segmento condilar del lado afectado (*Figura 3A y B*), permitiendo el precontorneo de placa de perfil 2.4 bloqueada. A su vez se efectuaron guías de corte impresas en resina fotocurable, biocompatible y autoclavable (*Figura 3C y D*).

Se hace marcaje del paciente (*Figura 4A*) bajo anestesia general balanceada inhalatoria, previa asepsia y antisepsia e infiltración de solución tumescente (1 L de solución salina 0.9%, 50 cm³ de lidocaína 2%, 10 cm³ de bicarbonato 8.4%, 1.2 cm³ de epinefrina 1:1,000). Se realizó abordaje submandibular bilateral conectados en línea media para la exposición completa de la lesión (*Figura 4B*), de igual manera se realizó abordaje intraoral de Newman desde mesial del primer molar inferior derecho hasta región retromolar contralateral. Al exponer la lesión se encuentra la cortical vestibular adelgazada con fenestraciones de la lesión en área central de la cortical (*Figura 4C*). Se continuó con la colocación de guías de corte fijadas con tornillos sistema 2.0 (*Figura 4D*), los cortes fueron diseñados en distal del canino inferior derecho y dejando 4 cm de remanente condilar izquierdo, se continuó con la colocación de la placa de 2.4 bloqueada adaptada previamente en modelo impreso 3D sirviendo a su vez como guía de reposicionamiento condilar, no siendo necesaria la modificación de ésta durante la cirugía, fue fijada con tres tornillos en el segmento proximal y cuatro en el distal (*Figura 4E*), teniendo contraindicado la colocación de injerto óseo por la extensión del defecto y sin contar con el personal y equipamiento

en el hospital para un colgajo microvascularizado para la reconstrucción inicial. Se realizó suspensión muscular a la placa de reconstrucción y cierre tanto intraoral como extraoral. El espécimen es enviado a patología para estudio histopatológico (*Figura 4F*).

En los cortes histológicos examinados se observó lesión de estirpe tumoral del tejido fibroósea constituida por una proliferación exagerada de tejido fibroconectivo dispuesto de manera desorganizada con fibroblastos activos y haces de fibras colágenas densas dispuestas en un estroma con características mixoides y otras áreas más colagenizadas, entremezcladas en este estroma es posible evidenciar estructuras irregulares calcificadas de osteoide, hueso y masas lobuladas y basofílicas más acelulares, sin presencia de atipias o mitosis aberrantes, borde anterior y posterior libre de neoplasia (*Figura 5*), reportando lesión compatible con fibroma osificante subtipo psamomatoide (*Figura 6*).

El postoperatorio inmediato cursó con buena evolución, se dio manejo con antimicrobianos, analgésico y antiinflamatorios intravenosos, a su vez se le colocó sonda nasogástrica. Fue dado de alta a los siete días tolerando dieta por vía oral y se continuó el control en consulta externa. El seguimiento rutinario clínico y tomográfico a tres meses de la cirugía (*Figura 7*) ha sido sin complicaciones, mostrando una adecuada simetría facial y una adaptación de la placa de reconstrucción y posicionamiento condilar igualmente adecuados. Actualmente se encuentra en espera de una futura reconstrucción con prótesis personalizada, la cual no se pudo realizar por no contar el paciente con el recurso económico.

DISCUSIÓN

El fibroma osificante juvenil es una lesión controvertida que se ha distinguido del fibroma osificante convencional con base en la edad del paciente, la predilección del sitio y la clínica. El término incluye dos variantes clínicas patológicas: 1) trabecular y 2) psamomatoide. Entre lesiones que involucran el esqueleto craneofacial, la variante psamomatoide se ha descrito con más frecuencia.⁴

La etiopatogenia es poco conocida. Entre los estudios realizados hasta ahora, no se reporta detección de mutaciones de GNAS o HRPT2 en fibromas osificantes juveniles, lo que sugiere que estas lesiones son distintas de la displasia fibrosa y fibromas osificantes convencionales.⁴

Los fibromas osificantes juveniles surgen con mayor frecuencia en niños, adolescentes y adultos jóvenes; sin embargo, un rango de edad más amplio

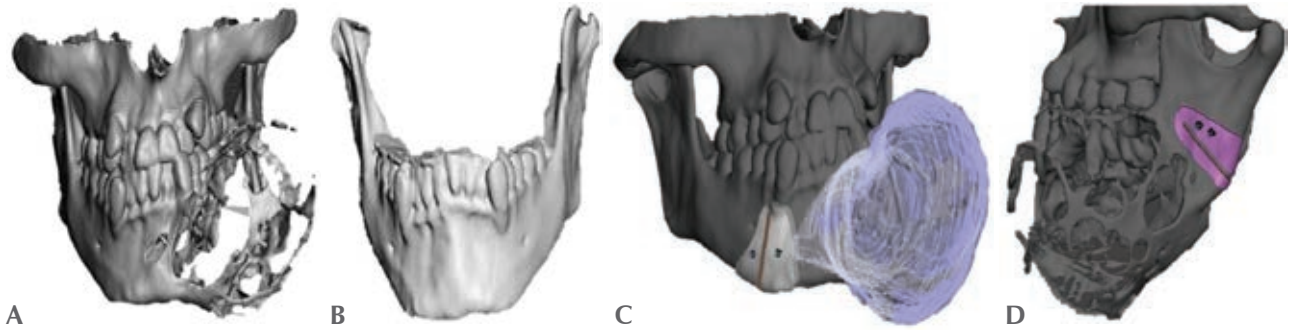


Figura 3: Imagen de la planeación virtual, reconstrucción 3D de modelo con lesión (A) y mandibular con efecto espejo (B) para su impresión y doblamiento de la placa de reconstrucción. C, D) Diseño de guías de corte.

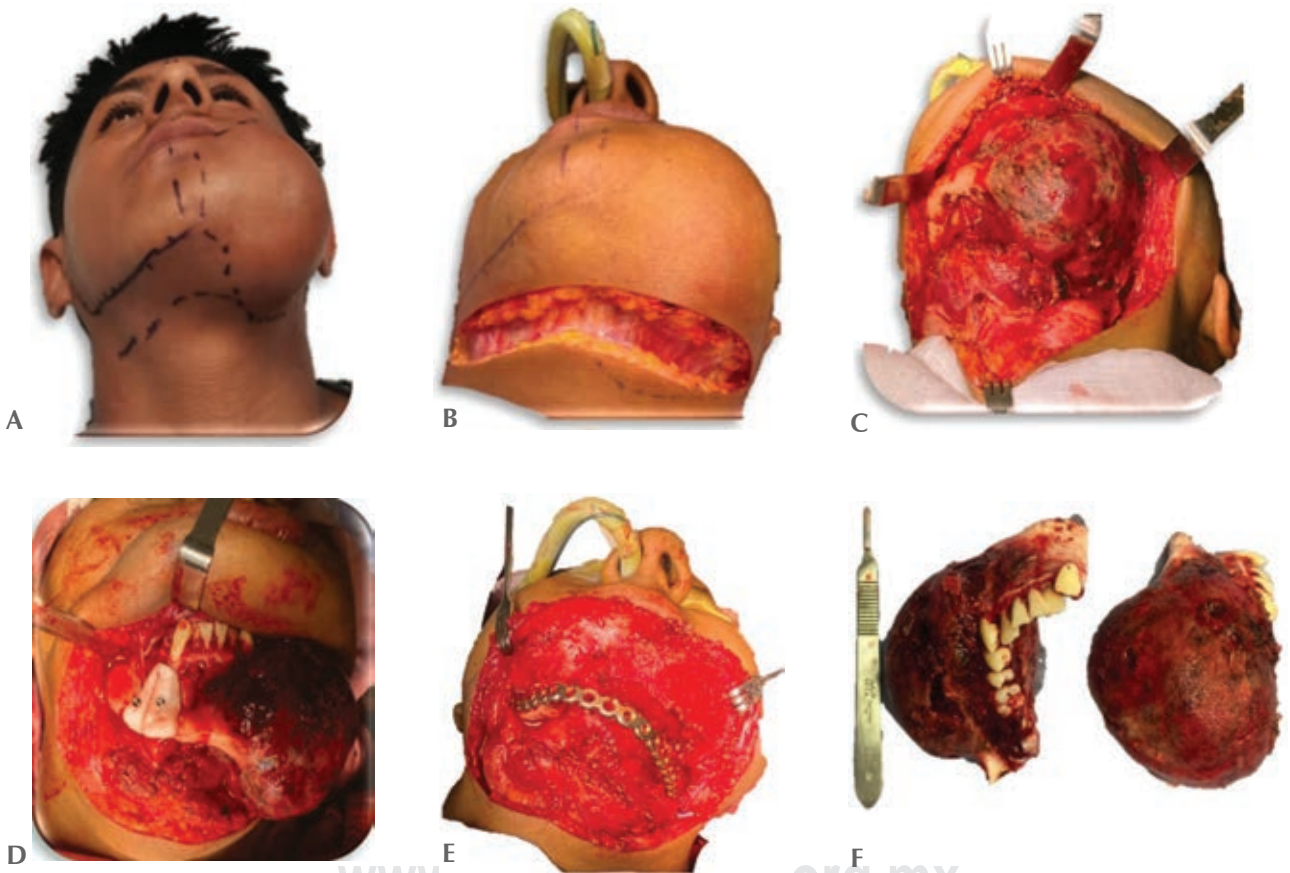


Figura 4: A-C) Fotografías del diseño del abordaje y exposición de la lesión. D) Fijación de guías de corte. E) Placa 2.4 bloqueada para reconstrucción mandibular. F) Especimen en fresco para estudio histopatológico.

ha sido reportado para la variante psamomatoide (de tres meses a 72 años) que para la variante trabecular (de dos a 33 años).⁴

De los casos clínicos de fibroma osificante encontrados en la literatura, Williams, Mangham y Speight mencionan que el fibroma osificante juvenil es la

variante que presenta mayor agresividad, crecimiento rápido y se manifiesta en individuos menores de 15 años, lo cual coincide con nuestro caso al ya tener más de dos años de evolución.¹⁰

Sciubba y Eversole establecen que el fibroma osificante tiene una predilección por el género

femenino en una relación de 1.5:1 a 5:1. Sin embargo, Su, Weathers y Waldron observaron en sus estudios que no existía una predilección por el género femenino. En el caso presentado se trató de paciente masculino.¹¹

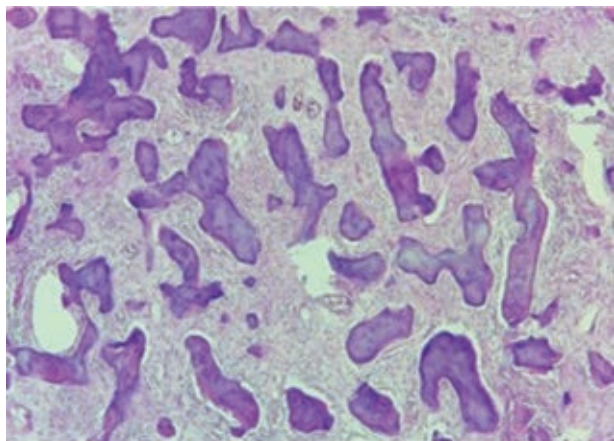


Figura 5: Microfotografía en donde se observa lesión de estirpe tumoral del tejido fibroóseo constituido por tejido fibroconectivo, haces de fibras colágenas densas en un estroma mixoide, estructuras irregulares calcificadas de osteoide, hueso y masas lobuladas.

Sapp, Eversole, Slotweg y Shafer reportaron que se localiza principalmente en región mandibular con mayor frecuencia en área de molares y premolares, coincidiendo con lo descrito en nuestro caso.¹¹

Aparece como una tumoración localizada e indurada que desplaza dientes, aunque conservan su vitalidad y la mucosa que lo recubre se observa



Figura 6: Fotografías clínicas. A) Preoperatoria y B) postoperatorio a los 3 meses.

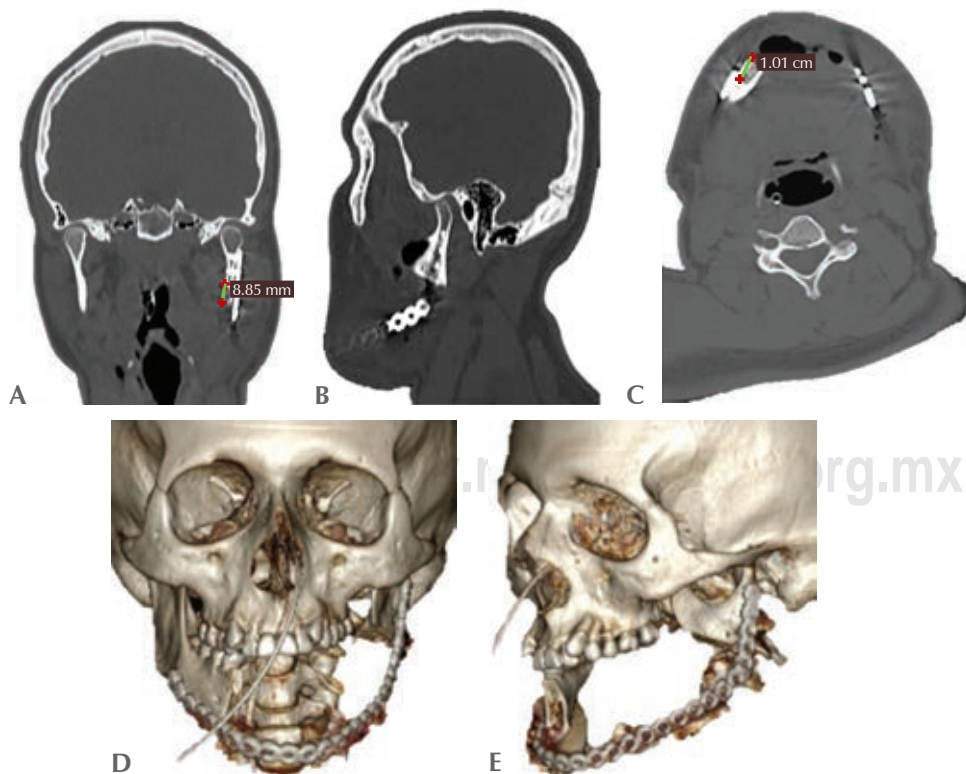


Figura 7:

Tomografía computarizada de control postoperatorio en la que se observa adecuada fijación de la placa de reconstrucción y correcto posicionamiento condilar.

intacta. En el caso presentado sólo existió diferencia en la localización, ya que fue en área maxilar, el resto coincide con lo descrito en la literatura.¹²⁻¹⁶

Martín-Granizo citó la existencia de un traumatismo previo en la zona, exodoncia previa y/o enfermedad periodontal como factores desencadenantes, difiriendo en el caso presentado.¹⁷

Se clasifican de acuerdo al tipo de tejido que se encuentre: si predomina el hueso se considera fibroma osificante, si hay presencia de trabéculas curvilíneas o calcificaciones esféricas se denomina fibroma cementificante y en la presencia de tejido óseo y cemento se considera fibroma cemento osificante. Eversole y colaboradores no encontraron diferencias histológicas entre el fibroma cemento osificante y el fibroma osificante.¹¹

La nomenclatura actual se simplifica refiriéndose a todas las lesiones de este grupo como fibromas osificantes, en el caso que nos ocupa se obtiene el diagnóstico de fibroma osificante.^{2,3,18}

Su y Eversole establecieron que radiográficamente se presenta una imagen radiolúcida con o sin focos radioopacos, lesión bien delimitada, asociada con frecuencia con expansión cortical, lo cual coincide en el caso reportado.¹⁹

El tratamiento que más se utiliza es la remoción quirúrgica de la lesión. Se recomienda la resección en bloque en los casos en que se presente recurrencia después de la primera intervención mediante enucleación de la lesión o en los casos que la lesión sea extensa y agresiva.²⁰⁻²² El protocolo utilizado para el tratamiento de este caso particular fue la resección en bloque.

El pronóstico del fibroma osificante es excelente y las recurrencias son poco frecuentes. No ha sido documentado en la literatura ningún caso de malignización.²²

Las ventajas que otorga la planificación virtual y el modelado de impresión tridimensional frente al tratamiento convencional son la disminución del tiempo operatorio y mayor precisión en la reconstrucción, lo cual provee de mejores resultados estéticos y funcionales como mejor simetría y satisfacción postquirúrgica por parte de los pacientes.²³ Además son una ayuda para la educación del paciente, mejoran la calidad diagnóstica e incluso pueden usarse en simulación preoperatoria.^{10,24,25}

Zhang y colaboradores afirman que la planificación virtual para la reconstrucción mandibular disminuye el tiempo de isquemia frente al tratamiento convencional, lo cual implica menores complicaciones postoperatorias.¹⁷ Asimismo, Salles y colaboradores manifiestan que se disminuye hasta 30% del tiempo operatorio con una previa simulación del procedimiento.

Por otro lado, existen actualmente placas prefabricadas de acuerdo con el tamaño mandibular o el sistema prefabricado de placas personalizadas; sin embargo, presentarían un alto costo para el paciente y el Estado, en caso de instituciones públicas, por esta razón en nuestro caso no se optó por esta forma de reconstrucción. El hecho de realizar el prefabricado de la placa sobre un modelo 3D, como en el caso actual presentado, permite obtener un resultado natural con perfecta simetría y con un costo razonable. Con nuestro protocolo y con el uso de una impresora 3D no industrial con programas gratuitos se pueden generar modelos anatómicos a bajo costo del esqueleto maxilofacial con tan solo una pequeña inversión que está al alcance de cualquier cirujano de práctica privada o institución académica.^{17,24,25}

CONCLUSIONES

En lo que respecta al fibroma osificante, se destaca su presentación desde la primera hasta la cuarta décadas de vida, la afectación de los huesos faciales y craneales y la presentación sin una enfermedad previa. Es importante realizar una adecuada exploración clínica, así como estudios de imagen e histopatológicos de las patologías con diagnóstico de presunción de lesiones fibroósicas que aparezcan en el territorio craneomaxilofacial para una detección temprana y que de esta manera los tratamientos sean más conservadores.

Por otro lado, en la práctica profesional se puede observar que un gran porcentaje de cirugías de reconstrucción facial se realizan sin planificación virtual con la manipulación *in situ* de los implantes a utilizar. Esto difícilmente puede asegurar un resultado simétrico y natural. Por ello, consideramos de gran importancia que la comunidad científica tenga conocimiento de la existencia y las ventajas de esta tecnología, la cual está disponible en el mundo hace tiempo, incluso se aplica en otros campos de la cirugía maxilofacial como la cirugía ortognática, cirugía de articulación temporomandibular y distracción osteogénica craneofacial.

REFERENCIAS

1. Titinchi F, Morkel J. Ossifying fibroma: Analysis of treatment methods and recurrence patterns. *J Oral Maxillofac Surg.* 2016; 74 (12): 2409-2419.
2. El-Naggar AK, Chan JKC, Grandis JR, Takata T, Slootweg P. WHO classification of head and neck tumours. 4th ed. Lyon: IARC; 2017.

3. Baral R, Ojha B, Bajracharya D, Bhattacharyya S, Singh S. Central ossifying fibroma. 2020; 16 (2).
4. Neville B, Damm D, Allen C, Chi A. Oral and maxillofacial pathology. 4th ed. St Louis: Elsevier; 2015.
5. Soluk-Tekkeşin M, Wright JM. The World Health Organization classification of odontogenic lesions: a summary of the changes of the 2017 (4th) edition. Turk Patoloji Derg. 2018; 34 (1). doi: 10.5146/tjpath.2017.01410.
6. Marx R, Stern D. Oral and maxillofacial pathology: a rationale for diagnosis and treatment. 2nd ed. Hanover Park, IL: Quintessence Publishing Company; 2012.
7. Jih MK, Kim JS. Three types of ossifying fibroma: A report of 4 cases with an analysis of CBCT features. Imaging Sci Dent. 2020; 50 (1): 65-71.
8. Wanzeler A, Rohden D, Arus N, Silveira H. Central cemento-ossifying fibroma: clinical-imaging and histopathological diagnosis. Int J Odontostomat. 2018; 12 (3): 233-236.
9. Nilesh K, Punde P, Patil NS, Gautam A. Central ossifying fibroma of mandible. BMJ Case Rep. 2020; 13 (12): e239286.
10. Erickson DM, Chance D, Schmitt S, Mathis J. An opinion survey of reported benefits from the use of stereolithographic models. J Oral Maxillofac Surg. 1999; 57 (9): 1040-1043.
11. Fuentes Vázquez FR, Mendoza Rosas V. Fibroma osificante: Reporte de un caso clínico y revisión de la literatura. Rev Odont Mex. 2006; 10 (2): 88-92.
12. Abbas S, Arman Y, Setareh S. Cemento-ossifying fibroma of the maxilla in CBCT imaging: a case report. Int J Clin Dent. 2017; 10 (1): 17-22.
13. Bala TK, Soni S, Dayal P, Ghosh I. Cemento-ossifying fibroma of the mandible. A clinicopathological report. Saudi Med J. 2017; 38 (5): 541-545.
14. da Silveira DT, Cardoso FO, Silva BJ, Alves Cardoso CA, Manzi FR. Ossifying fibroma: report on a clinical case, with the imaging and histopathological diagnosis made and treatment administered. Rev Bras Ortop. 2016; 51 (1): 100-104.
15. Velasco I, Ramos H, Vahdani S. Manejo quirúrgico de tumor mandibular asistido con la tecnología de impresión tridimensional: nota técnica y reporte de caso. Rev Chil Cir. 2017; 69 (4): 332-340.
16. Wilde F, Cornelius CP, Schramm A. Computer-assisted mandibular reconstruction using a patient-specific reconstruction plate fabricated with computer-aided design and manufacturing techniques. Craniomaxillofac Trauma Reconstr. 2014; 7 (2): 158-166.
17. Zhang L, Liu Z, Li B, Yu H, Shen SG, Wang X. Evaluation of computer-assisted mandibular reconstruction with vascularized fibular flap compared to conventional surgery. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol. 2016; 121 (2): 139-148.
18. Rucha P, Krishna K, Rakhi C. Central ossifying fibroma: a case of diagnostic dilemma. Guident. 2020; 13 (5): 33-35.
19. Eversole LR, Merrell PW, Strub D. Radiographic characteristics of central ossifying fibroma. Oral Surg Oral Med Oral Pathol. 1985; 59 (5): 522-527.
20. Swami AN, Kale LM, Mishra SS, Choudhary SH. Central ossifying fibroma of mandible: A case report and review of literature. J Indian Acad Oral Med Radiol. 2015; 27: 131-135.
21. Chang CC, Hung HY, Chang JY, Yu CH, Wang YP, Liu BY, et al. Central ossifying fibroma: a clinicopathologic study of 28 cases. J Formos Med Assoc. 2008; 107 (4): 288-294.
22. Chrcanovic BR, López Alvarenga R, Horta MCR, Freire-Maia B, Souza LN. Fibroma osificante central en el maxilar superior: reporte de un caso y revisión de la literatura. Av Odontostomatol. 2011; 27 (1): 33-39.
23. Ren W, Gao L, Li S, Chen C, Li F, Wang Q et al. Virtual planning and 3D printing modeling for mandibular reconstruction with fibula free flap. Med Oral Patol Oral Cir Bucal. 2018; 23 (3): e359-e366.
24. Mehra P, Miner J, D'Innocenzo R, Nadershah M. Use of 3-d stereolithographic models in oral and maxillofacial surgery. J Maxillofac Oral Surg. 2011; 10 (1): 6-13.
25. Ventola CL. Medical applications for 3d printing: current and projected uses. P T. 2014; 39 (10): 704-711.