Observation clinique

Fibromes ossifiants des maxillaires : des pièges diagnostiques ?

Julie Guillet, Rémi Curien, François Maschino, Daniel Viennet

Département de chirurgie buccale, Service d'odontologie, CHU de Nancy
Faculté d'odontologie de Nancy, Université de Lorraine, France

(Reçu le 1 décembre 2013, accepté le 30 Mars 2014)

Mots clés :
fibrome ossifiant /
tumeur bénigne /
chirurgie orale /
histologie

Key words:
ossifying fibroma /
benign tumour /
oral surgery /
histology

Résumé – Introduction : Les chirurgiens oraux sont régulièrement confrontés à des lésions osseuses ou muqueuses bénignes dont l'aspect est peu caractéristique. Ils doivent réaliser des examens complémentaires radiologiques, et faire analyser les pièces d'exérèse chirurgicales afin de connaître la nature histologique des lésions. **Observation :** Deux patientes présentant des fibromes ossifiants d'aspects cliniques différents, confirmés par les analyses histopathologiques, sont rapportés. **Discussion :** Il existe plusieurs classifications des tumeurs bénignes des maxillaires. Il est très difficile de trouver une homogénéité dans la littérature. Le diagnostic peut être difficile à poser. Seul un acte chirurgical (biopsie ou exérèse) associé à une analyse histologique peut le confirmer.

Abstract – Background: Oral surgeons are regularly confronted with benign osseous or mucosal lesions, with uncharacteristic appearance. They have to perform additional radiographs and analyse the surgical resections in order to know the exact histologic nature of the lesions. **Observation:** Two patients with particular ossifying fibromas, confirmed by histologic analysis, are presented here. These cases show how different clinical appearances can be for the same lesion. **Discussion:** There are several classifications for benign tumours of the jaws. Making a diagnosis can be difficult. Only a surgical treatment (biopsy or excision) with a histologic analysis will confirm the diagnosis.

Introduction

Le fibrome ossifiant est une tumeur bénigne des maxillaires, localisé préférentiellement à la mandibule dans les secteurs molaires et prémolaires. L'Organisation mondiale de la santé (OMS) a proposé en 1971 une première classification des lésions osseuses contenant du ciment. Quatre entités distinctes ont été décrites : la dysplasie fibreuse, le fibrome cimentifiant, le fibrome ossifiant et enfin le fibrome cémento-ossifiant [1]. Deux évolutions de cette classification ont été publiées. En 1992, les fibromes ossifiants et cimentifiants ont été regroupés en une seule entité tumorale, car ils ont pour origine les cellules desmodontales [2]. En 2005, l'OMS supprime le terme de fibrome cémento-ossifiant pour ne conserver que l'appellation fibrome ossifiant. Dans cette classification histologique des tumeurs odontogènes, le fibrome ossifiant

reste une entité distincte de la dysplasie fibreuse et de la dysplasie osseuse [3].

Le fibrome ossifiant est une tumeur différenciée, d'évolution généralement lente et progressive. Elle est composée de tissu fibreux, dans lequel sont emprisonnés des éléments osseux et/ou cémentaires, en quantité et en proportion variable [4]. Ces tumeurs sont généralement découvertes durant la deuxième ou la troisième décennie, et touchent principalement les femmes.

La lésion est souvent indolore, elle peut parfois entraîner des paresthésies ou des troubles de la sensibilité en comprimant les nerfs adjacents, notamment le nerf alvéolaire inférieur (V3). Les dents voisines de la tumeur sont généralement vitales et peuvent être refoulées. Les résorptions radiculaires sont rares. Le diagnostic est souvent fortuit, sauf les tumeurs déformant les maxillaires [5].

* Correspondance : j.guillet@chu-nancy.fr

Fig. 1. Aspect radiologique, a : CBCT, coupe transversale, b : CBCT, coupe sagittale.

Fig. 1. Radiological views, a: Axial cut CBCT, b: Sagittal cut CBCT.

Fig. 2. Cliché rétro-alvéolaire des incisives mandibulaires 3 mois après les traitements endodontiques.

Fig. 2. X-ray of mandibular incisors 3 months after endodontic treatments.

Radiologiquement, les lésions sont bien délimitées, sans érosion corticale [4-6]. En fonction de la prédominance des éléments fibreux, la lésion est plus ou moins radio-claire. Plus elle est ancienne, plus elle est radio-opaque.

Deux cas originaux de fibromes ossifiants confirmés par les analyses histopathologiques sont présentés.

Observations

Cas n° 1

Une femme, âgée de 42 ans, s'est présentée dans le service d'odontologie du CHU de Nancy pour une première consultation en octobre 2012. Le motif de la consultation était un contrôle de routine. L'interrogatoire médical ne révélait aucun antécédent personnel ou familial, ni traitement en cours. L'examen

Fig. 3. Vue endobuccale pendant l'intervention.

Fig. 3. Endobuccal view during surgery.

clinique objectivait une lésion carieuse sur 26. La présence de poches parodontales dans les secteurs molaires indiquait la réalisation d'un statut radiologique qui révélait une lésion osseuse du bloc incisif mandibulaire.

Les tests de vitalité au froid effectués sur les 4 incisives mandibulaires étaient négatifs. Aucune mobilité dentaire n'était observée. La palpation endo- et exo-buccale était normale. Un examen radiologique complémentaire cone beam (CBCT) était réalisé. Il montrait une lésion délimitée, mesurant 17 mm de grand axe et 6,3 mm de large. L'atteinte osseuse était bicorticale, avec une atteinte franche de la corticale linguale mais très partielle de la corticale vestibulaire. Le contenu de la lésion n'était pas homogène (Fig. 1). Diverses étiologies étaient évoquées : une dysplasie osseuse péri-apicale, un cémentoblastome, un fibrome ossifiant ou une dysplasie fibreuse. Devant l'absence de réponse aux tests de vitalité, les traitements endodontiques des 4 incisives mandibulaires étaient effectués. Aucune régression de la lésion n'était observée à l'imagerie dans les trois mois suivant les traitements endodontiques (Fig. 2).

Une exérèse chirurgicale a été effectuée sous anesthésie locale en mai 2013. Lors de la chirurgie, un lambeau de pleine épaisseur était levé de 33 à 43. On observait que la corticale vestibulaire de la mandibule est totalement préservée. Après trépanation osseuse, on découvrait une lésion mal délimitée, sans réel plan de clivage (Fig. 3). Elle présentait un contenu fibreux et calcifié par endroit. L'os sain était détruit en arrière des incisives centrales, ce qui a conduit à la résection apicale de 31 et 41 pour atteindre le versant lingual de la lésion qui détruisait la corticale.

L'examen anatomopathologique montrait une lésion tumorale bénigne de nature fibro-osseuse ; des structures osseuses de taille variable étaient observées au sein d'un contingent de cellularité assez élevé, fusiforme, et dépourvu de caractère

Fig. 4. a et b (coloration HE) : coupe histologique montrant de nombreuses cellules fusiformes ainsi que des structures d'os fibrillaire globuleuses, sans bordure ostéoblastique nette.

Fig.4. a and b. Histologic feature showing many spindle cells as well as globular bone fibrillar structures without net osteoblastic border.

Fig. 5. a et b. Vue endobuccale (a) et pièce opératoire (b) de la lésion pédiculée en regard de 36.

Fig. 5. a and b. Intra oral (a) and macroscopic view (b) of the pedonculated lesion facing 36.

atypique (Fig. 4). Le diagnostic évoqué était un « fibrome ossifiant », confirmé par le Groupe français de pathologie osseuse.

Cas n° 2

Une femme âgée de 50 ans était adressée en septembre 2012 pour avis sur une lésion gingivale mandibulaire gauche, localisée en regard de 36, présente depuis six mois. La patiente ne présentait aucun antécédent médico-chirurgical ni traitement en cours. L'examen clinique exo-buccal était normal. L'examen endo-buccal révélait une lésion pédiculée, de consistance mi-dure et rénitente à la palpation. Le cliché rétro-alvéolaire ne montrait pas de lyse osseuse en regard, ni d'atteinte de la furcation de 36. Le sondage parodontal est normal (2 à 3 mm) autour de la dent. L'aspect macroscopique de l'élément

faisait évoquer un épulis fibroblastique, un fibrome ou un granulome périphérique à cellules géantes (Fig. 5).

Une exérèse chirurgicale sous anesthésie locale était effectuée à la lame froide (Fig. 5). La gencive était laissée en cicatrisation dirigée. L'ensemble était envoyé au laboratoire d'anatomo-pathologie. L'analyse de la pièce d'exérèse décrivait une formation polypoïde mesurant 12 × 12 × 6 mm dont le revêtement était un épithélium malpighien hyperplasique et régulier, ulcéré en son centre et remplacé par un enduit fibrino-leucyttaire. Elle contenait de nombreux fibroblastes disposés dans tous les sens sur un fond fibrocollagène. Quelques cellules géantes multinucléées et des dépôts calcifiés de nature osseuse et/ou cémentaire étaient observés. L'analyse concluait à un « fibrome cémento-ossifiant ».

La patiente était revue en contrôle en décembre 2012, la gencive était hermétique et la patiente ne présentait pas de

Fig. 6. a et b (coloration HE) : coupe histologique du fibrome ossifiant périphérique montrant des cellules de nature fibroblastique, du collagène, et des éléments calcifiés de nature osseuse et/ou cémentaire.

Fig. 6. a and b. Histologic feature of peripheral ossifying fibroma showing fibroblasts, collagen, and calcified bone and/or cementum elements.

signes fonctionnels. En juillet 2013, la patiente s'est présentée avec une récurrence en regard de 36, évoluant lentement depuis six mois selon ses dires. L'aspect de la lésion était homogène et pédiculé. Une nouvelle intervention sous anesthésie locale était programmée, avec des marges d'exérèse plus larges (2 mm minimum) et un curetage minutieux de la base d'implantation. Le laboratoire d'anatomo-pathologie décrivait une tumeur mesurant 11 × 5 × 6 mm comprenant un épithélium malpighien, ulcéré, couvert d'un enduit fibrino-leucocytaire. Le collagène et les fibroblastes occupaient majoritairement le chœur, et l'on retrouvait de nouveau des dépôts minéralisés, à tendance ponctuellement ossifiante. Le diagnostic évoqué sur cette seconde exérèse était un « fibrome ossifiant périphérique ». Les limites d'exérèse étaient en zone saine.

Discussion

Les fibromes ossifiants sont majoritairement observés dans les secteurs mandibulaires postérieurs, et créent des déformations parfois importantes de l'os. Les deux cas présentés sont originaux car pour la patiente n° 1, la lésion touchait le secteur antérieur de la mandibule et n'avait occasionné aucune déformation osseuse. Pour la patiente n° 2, la lésion était extra-osseuse, d'évolution gingivale. L'analyse histologique de ces deux lésions retrouvait les caractéristiques typiques des fibromes ossifiants : un tissu fibreux composé de zones cellulaires et acellulaires, dans lequel on observait des dépôts minéralisés de nature osseuse ou cémentaire.

La caractéristique principale permettant la distinction entre le fibrome ossifiant et la dysplasie fibreuse est la présence de limites nettes (voire d'une encapsulation) de la lésion lorsqu'il s'agit d'un fibrome ossifiant, alors que la dysplasie fibreuse s'entremêle avec les structures anatomiques avoisinantes [3]. L'exérèse chirurgicale de la lésion du cas n° 1 avait été difficile en raison de l'absence de limites nettes entre la

tumeur et l'os sain, ce qui avait fait évoquer la dysplasie fibreuse en diagnostic différentiel. La dysplasie fibreuse est généralement diagnostiquée dans l'enfance ou chez l'adulte jeune, sous une forme monostotique ou polyostotique selon qu'elle touche un ou plusieurs os. Les atteintes des maxillaires occasionnent généralement des déplacements dentaires avec des malocclusions, et surtout des déformations importantes de la face comme le fibrome ossifiant. Cependant, la dysplasie fibreuse peut être un des signes de la triade de McCune-Albright : taches cutanées « café au lait », dysplasie fibreuse et pseudo-puberté précoce. La patiente n° 1 ne présentait qu'une lésion mandibulaire, ce qui éliminait le syndrome de McCune-Albright.

Dans le cas n° 2, la lésion est d'autant plus originale qu'aucune atteinte osseuse n'était observée. L'aspect macroscopique de cette lésion pouvait évoquer certaines tumeurs ou pseudo-tumeurs non épithéliales [7, 8] :

- le fibrome, de consistance dure ou molle, présentant des limites nettes et un aspect différent des tissus voisins ;
- le granulome périphérique à cellules géantes, qui se présente cliniquement comme un épulis fibreux, violacé, qui ne récidive théoriquement pas après exérèse et dont la présence de cellules géantes est caractéristique à l'examen anatomo-pathologique ;
- l'épulis fibroblastique ulcéré calcifiant et ossifiant, plus rare, mais dont les caractéristiques cliniques sont proches de la lésion de la patiente : nodule de plus de 1 cm, ulcéré en surface, avec une tendance à la récurrence.

Histologiquement, l'épulis fibroblastique ulcéré calcifiant et ossifiant présente, de la surface vers la profondeur, une ulcération tapissée d'un enduit fibrinoleucocytaire. Cet aspect correspondait à celui observé en microscopie sur la lésion n° 2. Pourtant, les analyses histologiques effectuées sur les deux pièces d'exérèse étaient identiques et tout à fait compatibles

Tableau I. Classification OMS histologique des tumeurs odontogènes [3].
Table I. WHO histological classification in odontogenic tumours [3].

MALIGNANT TUMOURS		Odontogenic epithelium with odontogenic ectomesenchyme, with or without hard tissue formation	
Odontogenic carcinomas		Ameloblastic fibroma	9330/0
Metastasizing (malignant) ameloblastoma ¹	9310/3	Ameloblastic fibrodentinoma	9271/0
Ameloblastic carcinoma – primary type	9270/3	Ameloblastic fibro-odontoma	9290/0
Ameloblastic carcinoma – secondary type (dedifferentiated), intraosseous	9270/3	Odontoma	9280/0
Ameloblastic carcinoma – secondary type (dedifferentiated), peripheral	9270/3	Odontoma, complex type	9282/0
Primary intraosseous squamous cell carcinoma – solid type	9270/3	Odontoma, compound type	9281/0
Primary intraosseous squamous cell carcinoma derived from keratocystic odontogenic tumour	9270/3	Odontoameloblastoma	9311/0
Primary intraosseous squamous cell carcinoma derived from odontogenic cysts	9270/3	Calcifying cystic odontogenic tumour	9301/0
Clear cell odontogenic carcinoma	9341/3	Dentinogenic ghost cell tumour	9302/0
Ghost cell odontogenic carcinoma	9302/3		
Odontogenic sarcomas		Mesenchyme and/or odontogenic ectomesenchyme with or without odontogenic epithelium	
Ameloblastic fibrosarcoma	9330/3	Odontogenic fibroma	9321/0
Ameloblastic fibrodentino–and fibro-odontosarcoma	9290/3	Odontogenic myxoma / myxofibroma	9320/0
		Cementoblastoma	9273/0
BENIGN TUMOURS		Bone-related lesions	
Odontogenic epithelium with mature, fibrous stroma without odontogenic ectomesenchyme		Ossifying fibroma	9262/0
Ameloblastoma, solid / multicystic type	9310/0	Fibrous dysplasia	
Ameloblastoma, extraosseous / peripheral type	9310/0	Osseous dysplasias	
Ameloblastoma, desmoplastic type	9310/0	Central giant cell lesion (granuloma)	
Ameloblastoma, unicystic type	9310/0	Cherubism	
Squamous odontogenic tumour	9312/0	Aneurysmal bone cyst	
Calcifying epithelial odontogenic tumour	9340/0	Simple bone cyst	
Adenomatoid odontogenic tumour	9300/0		
Keratocystic odontogenic tumour	9270/0	OTHER TUMOURS	
		Melanotic neuroectodermal tumour of infancy	9363/0
		see Chapter 1, pp. 70-73	

¹ Morphology code of the International Classification of Diseases for Oncology (ICD-O) (821) and the Systematized Nomenclature of Medicine (<http://snomed.org>). Behaviour is coded /0 for benign tumours, /3 for malignant tumours, and /1 for borderline or uncertain behaviour.

Tableau II. Classification des lésions fibro-osseuses d'après Wood et Goaz, 1997 [11].
Table II. Wood and Goaz classification of fibro-osseous lesions [11].

Dysplasies fibreuses	Dysplasie fibreuse monostotique Dysplasie polyostotique
Dysplasies réactionnelles de la région alvéolo-dentaire <i>Elles dérivent du desmodonte. Trois entités sont proposées selon leur aspect radiologique</i>	Dysplasie ostéo-cémentaire périapicale Dysplasie ostéo-cémentaire focale Dysplasie ostéo-cémentaire floride
Tumeurs fibro-osseuses	Fibrome cémento-ossifiant Fibrome ossifiant (agressif, extragnathique) Fibrome ossifiant juvénile

avec un fibrome ossifiant. Le chorion était occupé majoritairement par des fibroblastes et des éléments collagéniques, parmi lesquels on retrouvait des dépôts minéralisés, dont la nature osseuse ou cémentaire était difficile à préciser.

La classification des lésions ossifiantes, cémentifiantes ou cémento-ossifiantes est parfois imprécise. Certains auteurs les placent dans le groupe des tumeurs et pseudo-tumeurs

bénignes non odontogènes des maxillaires [9, 10], alors que l'OMS les classe depuis 2005 parmi les tumeurs odontogènes (Tab. I) [3]. La classification publiée en 1997 par Wood et Goaz proposait une différenciation des lésions fibro-osseuses selon leur aspect radiologique, notamment pour les dysplasies réactionnelles de la région alvéolo-dentaire (Tab. II) [11]. Ces différentes classifications peuvent prêter à confusion,

mais l'origine desmodontale de ces lésions en est le dénominateur commun. Comme l'expliquent Marx et Stern, la localisation préférentiellement maxillaire et mandibulaire des fibromes ossifiants est probablement liée à l'induction mésenchymateuse des cellules nécessaires à l'odontogenèse [12]. Quelle que soit leur localisation, ces lésions bénignes sont d'évolution lente et progressive. L'exérèse doit être complète pour limiter les risques de récurrence. Il est important que le diagnostic soit confirmé par une analyse histopathologique, et que celle-ci soit de préférence effectuée par des histologistes experts en pathologie buccale.

Conclusion

Le fibrome ossifiant est une lésion d'aspect clinique variable. Les localisations sont intra-osseuses centrales ou périphériques gingivales. La majorité des fibromes ossifiants peut être traitée par une exérèse chirurgicale conservatrice. Dans les rares cas de lésion agressive, qui touchent plutôt les enfants et les adultes jeunes, le traitement chirurgical doit être plus agressif en raison du risque de récurrence et de la grande taille des lésions [6]. Le diagnostic est généralement orienté par l'aspect clinique et radiologique, mais seule l'analyse anatomo-pathologique permet la confirmation du diagnostic.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Sheikhi M, Mosavat F, Jalalian F, Rashidipoor R. Central cementifying fibroma of maxilla. *Dent Res J (Isfahan)* 2013; 10:122-25.
2. Kramer IR, Pindborg JJ, Shear M. The WHO Histological Typing of Odontogenic Tumours. A commentary on the Second Edition. *Cancer* 1992;70:2988-94.
3. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D (Eds.). World Health Organization Classification of Tumours. Pathology and Genetics of Head and Neck Tumours. IARC Press ed., Lyon, 2005, p. 284-323.
4. Trijolet JP, Parmentier J, Sury F, Goga D, Mejean N, Laure B. Cemento-ossifying fibroma of the mandible. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* 2011;128:30-3.
5. Akcam T, et al. Synchronous ossifying fibromas of the jaws: a review. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012;114: 120-25.
6. Triantafyllidou K, Venetis G, Karakinaris G, Iordanidis F. Ossifying fibroma of the jaws: a clinical study of 14 cases and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012; 114:193-99.
7. Kuffer R, Lombardi T, Husson-Bui C, Courrier B, Samson J. La Muqueuse buccale : de la clinique au traitement. *Med'Com ed.* Paris, 2009, p. 161-62.
8. Hachicha I, Sioud S, Njim L, Ben Amor F, Selmi J. Fibrome cémento-ossifiant périphérique maxillaire postérieur. *Med Buccale Chir Buccale* 2010;16:255-58.
9. Brygo A, Leroy X, Maes J-M, Ferri J. Tumeurs et pseudotumeurs non odontogènes bénignes des maxillaires. EMC (Elsevier Masson SAS, Paris). *Médecine Buccale* 2008;28-550-M-10:1-12.
10. Sujatha D, Shubha G, Anuradha P, Ragavendra MN. Giant cemento-ossifying fibroma of the mandible: a rare case. *Gen Dent* 2013; 61:13-16.
11. Wood NK, Goaz P. Differential diagnosis of oral and maxillofacial lesions. Mosby edition, St Louis, 1997, p. 328-29.
12. Marx R, Stern D. Oral and Maxillofacial Pathology. A rationale for diagnosis and treatment. Quintessence, Chicago, 2002, p. 789-95.