

Cas clinique et revue de la littérature

Le fibrome ossifiant juvénile : 2 cas et revue de littérature

Sofia Haitami^{1,*}, Hajar Oulammou¹, Mounia Bouhairi¹, Zineb El Jalil²,
Ihsane Ben Yahya¹

¹ CHU Ibn Rochd, Centre de consultation et de traitement dentaire, service d'odontologie chirurgicale, Casablanca

² CHU Ibn Rochd, Centre de consultation et de traitement dentaire, service de pédodontie prévention, Casablanca

(Reçu le 14 février 2015, accepté le 7 juin 2015)

Mots clés :

**fibrome ossifiant /
juvénile / traitement /
pronostic**

Résumé – Introduction : Le fibrome ossifiant juvénile (FOJ) est une tumeur bénigne très agressive localement avec une forte tendance à la récurrence. **Observation :** deux cas présentant des caractéristiques cliniques, radiologiques et pronostiques différentes sont rapportés. Le 1^{er} cas est celui d'une patiente âgée de 18 ans qui s'est présentée avec une tuméfaction prémaxillaire gauche évoluant depuis 1 an. La particularité de ce cas a été la survenue de multiples récurrences malgré des interventions itératives. Le second cas concernait un enfant de 7 ans qui s'est présentée avec une tuméfaction génienne haute indolore évoluant depuis 4 mois, dont le traitement a consisté en une exérèse de la lésion. Le suivi post-opératoire à 2 ans n'a révélé aucune récurrence. **Discussion :** Le FOJ est une tumeur fibro-osseuse peu fréquente par rapport aux fibromes ossifiants conventionnels. Ses caractéristiques sont la production d'une matrice trabéculaire ou psammomatoïde, la forte prévalence chez les jeunes patients et une prédilection pour les os des sinus paranasaux, la région péri-orbitaire et le maxillaire. Les deux cas présentés corroborent les données épidémiologiques rapportées dans la littérature.

Key words:

**Ossifying fibroma /
juvenile / treatment /
prognosis**

Abstract – Juvenile ossifying fibroma: report of two cases and review of the literature. Introduction: Juvenile ossifying fibroma is an uncommon fibro-osseous tumor affecting the facial bones. It is a locally aggressive benign tumor with a high tendency to recur. **Observation:** This article reports 2 cases with different clinical, radiological and prognostic features, both of which were diagnosed as juvenile ossifying fibroma. The first case is a woman of 18 years who presented with swelling of the left premaxilla lasting for 1 year. The special feature of this case was the occurrence of multiple recurrences despite many operations. The second case is a 7-year-old child who presented with painless swelling lasting for 4 months. The treatment consisted of surgical exeresis of the lesion. The post-operative follow-up at 2 years showed no recurrence. **Discussion:** Juvenile ossifying fibroma is an infrequent fibro-osseous tumor. Its characteristics are trabecular or psammomatoid matrix production, high prevalence in young patients, and a predilection for periorbital and maxillar bones. The 2 cases presented corroborate the epidemiological data reported in the literature on the various aspects of this type of tumor.

Introduction

Les lésions fibro-osseuses cranio-faciales se caractérisent par la transformation du tissu osseux de structure normale en tissu fibreux qui peut se minéraliser sous différentes formes : os spongieux, os lamellaire ou tissu cémentaire [1]. La majorité de ces tumeurs est asymptomatique et de progression lente.

Le fibrome ossifiant juvénile (FOJ) est l'une de ces tumeurs fibro-osseuses qui survient chez les patients jeunes avec un potentiel de croissance rapide [2, 3]. Il est peu fréquent et se caractérise par la transformation de l'os en tissu fibreux bénin avec un degré variable de minéralisation [4]. Il atteint préférentiellement les os de la face. Il est très agressif localement et présente une forte tendance à la récurrence [5]. Il peut se présenter sous deux formes histologiques, psammomatoïde et

* Correspondance : haitamisofia@yahoo.com

trabéculaire, se caractérisant chacune par sa localisation, son âge de survenue et son agressivité. Nous rapportons deux cas de FOJ diagnostiqués dans le service d'odontologie chirurgicale de Casablanca.

Observation

Cas 1

Il s'agissait d'une jeune fille de 18 ans, adressée par son médecin dentiste pour une tuméfaction au niveau du prémaxillaire gauche évoluant depuis 1 an et générant un préjudice esthétique important.

L'inspection a montré une asymétrie faciale en rapport avec une tuméfaction maxillaire gauche entraînant une élévation du seuil nasinaire gauche et un effacement du sillon naso-génien gauche. À la palpation exo-buccale, la tuméfaction était de consistance dure, indolore et bien limitée. Il n'y avait pas d'adénopathie. L'examen endobuccal a révélé la présence d'un nodule siégeant au niveau du prémaxillaire s'étendant en vestibulaire et en palatin. La lésion était bien limitée, dure par endroit et recouverte d'une muqueuse légèrement érythémateuse. Les 21 et 23 étaient déplacées et leur test de vitalité était positif. La 22 a été extraite par son médecin dentiste lors d'une tentative de traitement de la tuméfaction deux mois auparavant (Fig. 1).

La radiographie panoramique a révélé une lésion radio-opaque de densité mixte au niveau de la région antéro-maxillaire gauche.

Le Dentascan a également montré une lésion osseuse mixte, ostéolytique et ostéocondensante, englobant les racines de 23 et 21, bien limitée avec rupture des tables vestibulaire et palatine (Fig. 2).

Une ponction de la lésion a été réalisée dans le but d'identifier la nature du contenu. Cette dernière ne ramenant aucun liquide a confirmé la nature pleine de la tumeur.

Se basant sur les données cliniques et radiologiques, les diagnostics évoqués à ce stade étaient un chondrome, un fibrome ossifiant et une dysplasie fibreuse.

Au cours de la chirurgie, la lésion n'était pas encapsulée, il n'y avait plus de corticales vestibulaire et palatine. Le traitement a consisté en un curetage de la lésion sous anesthésie locale. N'ayant plus de support osseux, l'avulsion de la 21 a été réalisée en cours d'intervention.

L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a conclu à un fibrome ossifiant de type psammomateux (Fig. 3). Compte tenu de la nature récidivante de cette tumeur, des contrôles rapprochés ont été instaurés. À 2 semaines, la cicatrisation était en bonne voie. À 6 semaines, elle était complète et l'examen radiologique n'a pas objectivé de lésion osseuse ou d'autre signe de récurrence. Une réhabilitation prothétique amovible provisoire remplaçant les 21 et 22 a été réalisée.

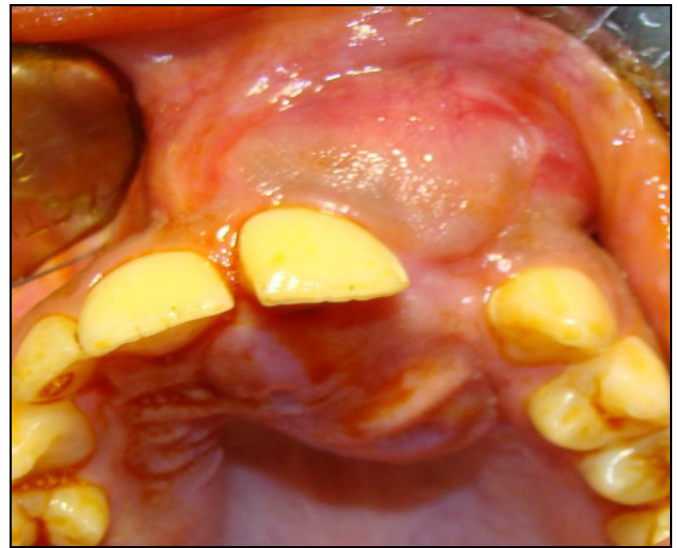


Fig. 1. Tuméfaction bilobée vestibulaire et palatine recouverte par une muqueuse d'aspect normal s'étendant de la 11 à la 24 avec absence de la 12 (cas 1).

Fig. 1. Tumefaction with normal mucosa around teeth 11-13 with agenesis of 12.



Fig. 2. Coupe transversale d'un Dentascan montrant une lésion osseuse mixte refoulant la 21, avec rupture des tables vestibulaire et palatine (cas 1).

Fig. 2. Dentascan view showing osseous lesion with moving of the tooth 21 and disappearance of lingual and vestibular tables (cas 1).

Deux mois plus tard, la patiente s'est présentée à son contrôle en rapportant une sensation de tuméfaction nasogénienne gauche haute confirmée par l'examen clinique.

Un Dentascan maxillaire a permis de visualiser une masse mal limitée à proximité de l'ancien site d'intervention, la

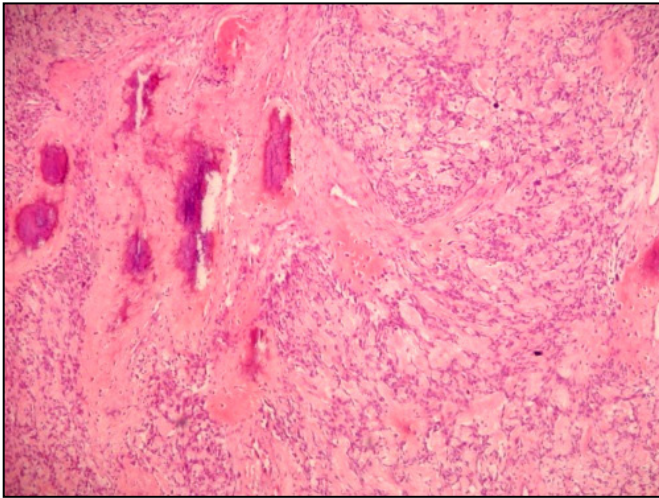


Fig. 3. Aspect microscopique en faveur d'un fibrome ossifiant juvénile de type psammomatoïde (cas 1).

Fig. 3. Microscopic view showing psammomatoid aspect of the lesion with few trabecular bone in fibrous connective tissue.



Fig. 4. Tuméfaction située en regard de la 61, 62 et 63 comblant le vestibule, recouverte d'une muqueuse d'aspect normal et entraînant un déplacement dentaire (cas 2).

Fig. 4. Vestibular tumefaction around teeth 61-63. The mucosa is normal. Teeth dystopia is observed.

patiente a donc été adressée au service de chirurgie maxillo-faciale pour une intervention plus large, à la suite de laquelle la patiente a encore récidivé. Une héli-maxillectomie a été réalisée en troisième intention.

Cas 2

L'enfant M.I., âgée de 7 ans, s'est présentée à la consultation du service d'odontologie chirurgicale de Casablanca pour

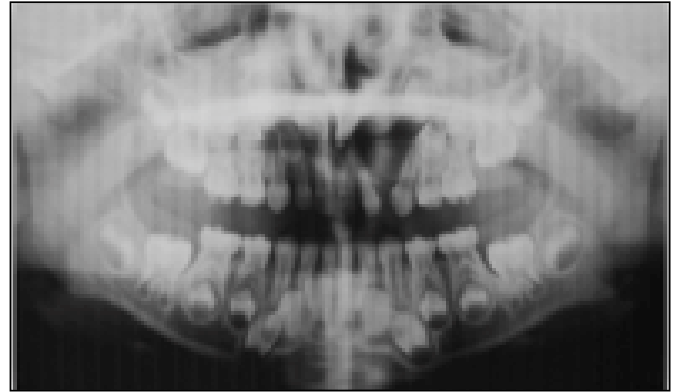


Fig. 5. Radiographie panoramique montrant une lésion radio-claire bien limitée refoulant les germes dentaires de la 21, 22, et 23 et déplaçant les 61, 62 et 63 (cas 2).

Fig. 5. Orthopantomogram showing osteolytic lesion with moving of 21-23 dental germs and 61-63 teeth.

une tuméfaction génienne haute indolore évoluant depuis 4 mois. À l'interrogatoire, les parents ont rapporté un antécédent de traumatisme à l'âge de 5 ans, intéressant la région maxillaire supérieure et n'ayant fait l'objet d'aucune prise en charge.

L'examen clinique a révélé la présence d'une tuméfaction dure, indolore, comblant le vestibule et s'étendant de la face mésiale de la 61 à la face distale de la 64 (Fig. 4). Le test de vitalité était positif au niveau de la 61, 62, 63.

L'examen radiologique a montré une lésion radio-claire localisée entre les racines des 62 et 63 déplacées latéralement et qui refoulait les germes des 21, 22 et 23 (Fig. 5).

Les diagnostics évoqués à ce stade étaient un kyste traumatique, de par l'histoire de la maladie, un chondrome et un kyste globulo-maxillaire, de par sa localisation et ses aspects clinique et radiologique, ainsi qu'un fibrome ossifiant juvénile qui survient à un âge précoce et qui revêt le même aspect radiologique radio-clair en début d'évolution.

Le traitement a consisté en l'énucléation chirurgicale, sous anesthésie locale, de la totalité de la tumeur jusqu'à l'os sain. La dent 62 dont la racine était située au sein de la lésion a été extraite. L'examen anatomopathologique de la pièce opératoire a montré la nature fibroblastique du tissu avec des cellules régulières dissociées par des lamelles osseuses. L'os était régulier, creusé de logettes unicellulaires, sans atypies, ni figures de mitose. Ces lamelles osseuses étaient bordées d'ostéoblastes réguliers, avec de rares cellules ostéoclastiques. Le diagnostic anatomopathologique évoqué était un fibrome ossifiant juvénile (Fig. 6).

Le contrôle clinique et radiologique à deux ans a montré une cicatrisation muqueuse et osseuse complète avec un retard d'éruption des dents 21 et 22.

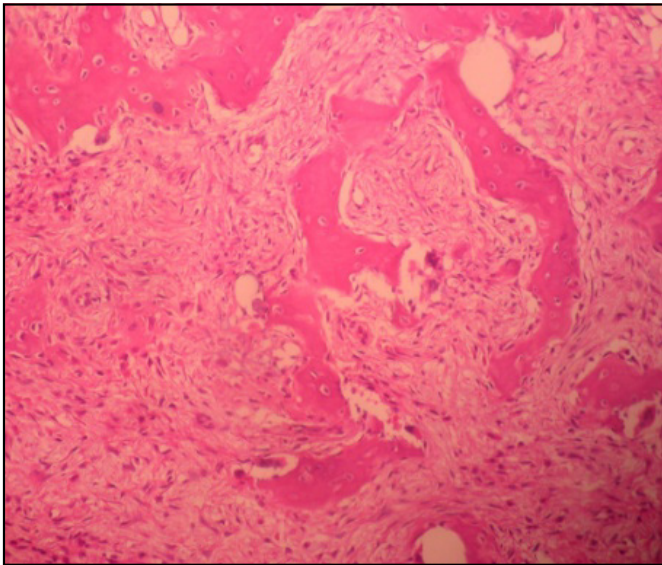


Fig. 6. Aspect histologique de la pièce opératoire concluant à un fibrome ossifiant (cas 2).

Fig. 6. Histological view showing trabecular bone in fibrous connective tissue (cas 2) typical of ossifying fibroma.

Discussion

Le fibrome ossifiant juvénile est une tumeur néoplasique bénigne parfois très agressive. Son étiologie est mal connue. Certaines études rapportent une anomalie de différenciation des cellules mésenchymateuses du ligament parodontal [6], d'autres rapportent la possibilité d'une origine malformative du tissu à l'origine des septa inter-radiculaires des molaires [7]. Pimenta, en 2006, a rapporté l'association de la mutation du gène suppresseur de tumeur (HRPT2) [8]. Ce résultat a été nuancé par l'étude immunohistochimique de Satoru Toyosawa en 2007 qui démontrait que seuls deux cas sur quatre présentaient cette mutation [9].

Le fibrome ossifiant juvénile touche essentiellement les enfants et les patients jeunes [10], ce qui concorde parfaitement avec nos deux cas cliniques (18 et 7 ans). La prédilection de sexe est sujet de controverse : Johnson et al. [11] rapportent une incidence plus élevée chez les femmes, El-Mofty [2] parle d'une prédilection masculine alors que d'autres auteurs ne notent aucune prédilection de sexe [4]. Cliniquement, le fibrome ossifiant juvénile se manifeste par une tuméfaction dure évoluant de façon asymptomatique pouvant entraîner une asymétrie faciale. Le rythme de croissance de la tumeur diffère selon sa localisation et son agressivité. Son augmentation de volume peut être à l'origine de paresthésie, malocclusion, sinusite ou proptosis [12, 13]. De façon générale, le FOJ est une

tumeur très agressive et de croissance rapide comparée à d'autres lésions fibro-osseuses des maxillaires.

Radiologiquement, la lésion peut apparaître radio-opaque, radio-claire ou mixte en fonction du degré de calcification [2, 14]. Cette différence d'aspect radiologique a également été relevée chez nos deux patientes. La tumeur peut entraîner une expansion ou une rupture des corticales, un déplacement voire une résorption des racines [2, 13]. Le fibrome ossifiant est caractérisé par un aspect en « verre dépoli », non encapsulé, séparé de l'os environnant par une frontière radio-opaque [12, 14]. Cet aspect peut aider à le différencier de la dysplasie fibreuse qui est caractérisée par une image radiographique sans limite nette [15].

El-Mofty, en 2002 [2], s'est basé sur des critères histologiques pour classer le fibrome ossifiant en deux catégories : le fibrome ossifiant trabéculaire qui survient essentiellement entre 8 et 12 ans correspond à notre 2^e cas ; le psammomatoïde qui survient entre 16 et 33 ans dans la région sinusale et orbitaire [16]. La variante psammomatoïde est légèrement plus cellulaire que la trabéculaire [2, 17, 18, 19, 20].

L'évolution clinique de la forme psammomatoïde est plus agressive et récidivante [3], ce qui justifie probablement les récurrences multiples de notre première patiente et la nécessité de recourir à une chirurgie plus large.

Le diagnostic différentiel du FOJ doit se faire avec toutes les lésions kystiques, mais aussi avec la dysplasie fibreuse [3]. L'examen anatomopathologique permet d'éliminer les kystes mais le diagnostic différentiel avec la dysplasie fibreuse est plus compliqué. L'absence de limite nette de la dysplasie fibreuse au cours de l'intervention chirurgicale est un point important du diagnostic différentiel.

La prise en charge des FOJ est sujette à controverses. Il n'existe pas de consensus entre les auteurs. Les petites lésions peuvent être traitées par curetage ou énucléation [21, 22]. Certains auteurs proposent des marges de sécurité de 5 mm [4, 23]. Une approche chirurgicale plus large, voire interruptrice, est préconisée pour les tumeurs volumineuses et infiltrantes [24, 25]. La reconstruction sera fonction de la taille de la résection.

Les taux de récurrence sont de 30 % à 58 % [11] avec un intervalle de 9 mois. Les récurrences sont en rapport avec une exérèse incomplète. Nos deux cas ont été pris en charge de manière conservatrice par un curetage jusqu'à des limites cliniquement saines. Cependant, il semblerait que cela n'ait pas été suffisant pour le premier cas qui a récidivé plusieurs fois malgré la deuxième et la troisième intervention plus larges, tandis que le second cas a bien réagi sans aucune récurrence à deux ans. Les récurrences du premier cas pourraient être liées au retard de prise en charge.

Conflits d'intérêt : aucun

Références

1. Waldron CA. Fibro-osseous lesions of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg* 1993;51:828-835.
2. El-Mofty S. Psammomatoid and trabecular juvenile ossifying fibroma of the craniofacial skeleton: Two distinct clinicopathologic entities. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2002;93:296-304.
3. Osunde OD, Lyogun CA, Adebola RA. Juvenile aggressive ossifying fibroma of the maxilla: a case report and review of the literature. *Ann Med Health Sci Res* 2013;3(2):288-290.
4. Pace C, Crosher R, Holt D, Pace A. An estimate of the rate of growth of a juvenile aggressive ossifying fibroma in a 15 year old child. *J Oral Sci* 2010;52:329-332.
5. Thankappan S, Nair S, Thomas V, Sharafudee KP. Psammomatoid and trabecular variants of juvenile ossifying fibroma-two case reports. *Indian J Radiol Imaging* 2009;19:116-119.
6. Bertrand B, Eloy PH, Cornelis JP, Gosseye S, Clotuche J, Gilliard CL. Juvenile aggressive cemento-ossifying fibroma: Case report and review of the literature. *Laryngoscope* 1993;103:1385-1390.
7. Lawton MT, Heiserman JE, Coons SW, Ragsdale BD, Spetzler RF. Juvenile active ossifying fibroma: Report of four cases. *J Neurosurg* 1997;86:279-285.
8. Pimenta FJ, Gontijo Silveira LF, Tavares GC Silva AC, Perdigao PF, Castro WH, et al. HRPT2 gene alterations in ossifying fibroma of the jaws. *Oral Oncol* 2006;42:735-739.
9. Toyosawa S, Yuki M, Kishino M, Ogawa Y, Ueda T, Murakami S, et al. Ossifying fibroma vs fibrous dysplasia of the jaw: molecular and immunological characterization. *Mod Pathol* 2007;20:389-396.
10. Zama M, Gallo S, Santecchia L, Bertozzi E, De Stefano C. Juvenile active ossifying fibroma with massive involvement of the mandible. *Plast Reconstr Surg* 2004;113:970-974.
11. Johnson LC, Yousefi M, Vinh TN, Heffner DK, Hyams VJ, Hartman KS. Juvenile active ossifying fibroma. Its nature, dynamics and origin. *Acta Otolaryngol Suppl* 1991;488:1-40.
12. Malathi N, Radhika T, Thamizhchelvan H, Ravindran C, Ramkumar S, Giri GVV, et al. Psammomatoid juvenile ossifying fibroma of the jaws. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011;15:326-329.
13. Noffke CEE. Juvenile ossifying fibroma of the mandible. An 8 year radiological follow-up. *Dentomaxillofac Radiol* 1998;27:363-366.
14. Offiah C, Hall E. The rapidly enlarging chin mass. *Br J Radiol* 2005;78:175-176.
15. Saiz-Pardo-Pinos AJ, Olmedo-Gaya MV, Prados-Sánchez E, Vallecillo-Capilla M. Fibroma óseo juvenil: a propósito de un caso clínico. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2004;9:454-458.
16. Syarifah N, Tuan H, Roselinda AR, Irfan M. Juvenile ossifying fibroma of the maxilla: a case report. *Bang J of Med Sci* 2010;9:50-53.
17. Tolentino ES, Centurion BS, Tjioe KC, Casaroto AR, Tobouti PL, Frederique Junior U, et al. Psammomatoid juvenile ossifying fibroma: an analysis of 2 cases affecting the mandible with review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2012;113:40-45.
18. Slootweg PJ, Panders AK, Koopmans R, Nikkels PG. Juvenile ossifying fibroma: An analysis of 33 cases with emphasis on histopathological aspects. *J Oral Pathol Med* 1994;23:385-388.
19. Foss RD, Fielding CG. Juvenile psammomatoid ossifying fibroma. *Head Neck Pathol* 2007;1:33-34.
20. Sun G, Chen X, Tang E, Li Z, Li J. Juvenile ossifying fibroma of the maxilla. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2007;36:82-85.
21. Sankaranarayanan S, Srinivas S, Sivakumar P, Sudhakar R, Elangovan S. "Hybrid" lesion of the maxilla. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011;15:299-302.
22. Koury ME, Regezi JA, Perrott DH, Kaban LB. Atypical fibro-osseous lesions: Diagnostic challenges and treatment concepts. *Int J Oral Maxillofac Surg* 1995;24:162-169.
23. Shekhar MG, Bokhari K. Juvenile aggressive ossifying fibroma of the maxilla. *J Indian Soc Pedod Prev dent* 2009;27:170-174.
24. Smith SF, Newman L, Walker DM, Papadopoulos H. Juvenile aggressive psammomatoid ossifying fibroma: an interesting, challenging, and unusual case report and review of the literature. *J Oral Maxillofac Surg* 2009;67:200-206.
25. Breheret R, Jeufroy C, Cassagnau E, Malard O. Juvenile ossifying fibroma of the maxilla. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* 2011;128:317-320.
26. Keles B, Duran M, Uyar Y, Azimov A, Demirkan A, Esen H. Juvenile ossifying fibroma of the mandible: a case report. *J Oral Maxillofac Res* 2010;1:5.