

Artigo de Relato de Caso
Case Report Article

Defeito osteoporótico focal da medula mimetizando um cisto residual: relato de caso

Focal osteoporotic bone marrow defect mimicking a residual cyst: case report

Yasmin Peçanha Madureira Corrêa¹
Letícia Côgo Marques^{2, 3}
Adriana Raymundo Bezerra⁴
Paulo da Costa Rodrigues⁵
Adriane Baptista Maia⁵
Vanessa de Paiva Reis⁶
Danielle Castex Conde^{1, 5, 7, 8}

Autor para correspondência:

Danielle Castex Conde
Hospital Central da Polícia Militar do Estado do Rio de Janeiro
Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial
R. Estácio de Sá, n. 20 – Cidade Nova
CEP 20211-270 – Rio de Janeiro – RJ – Brasil
E-mail: daniellecstex@yahoo.com.br

¹ Curso de Odontologia, Universidade Veiga de Almeida – Rio de Janeiro – RJ – Brasil.

² Programa de Pós-graduação em Patologia, Faculdade de Medicina, Universidade Federal Fluminense – Niterói – RJ – Brasil.

³ Setor de Odontologia, Seção de Atenção à Saúde e Assistência Social, Universidade Federal do Espírito Santo – Alegre – ES – Brasil.

⁴ Serviço de Cirurgia da Odontoclínica Central da Polícia Militar do Estado do Rio de Janeiro – Rio de Janeiro – RJ – Brasil.

⁵ Serviço de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial do Hospital Central da Polícia Militar do Estado do Rio de Janeiro – Rio de Janeiro – RJ – Brasil.

⁶ Serviço de Cirurgia da Policlínica de Cascadura da Polícia Militar do Estado do Rio de Janeiro – Rio de Janeiro – RJ – Brasil.

⁷ Serviço de Anatomia Patológica do Hospital Central da Polícia Militar do Estado do Rio de Janeiro – Rio de Janeiro – RJ – Brasil.

⁸ Departamento de Patologia, Faculdade de Medicina, Universidade Federal Fluminense – Niterói – RJ – Brasil.

Data de recebimento: 16 set. 2021. Data de aceite: 7 jun. 2022.

Palavras-chave:

defeito osteoporótico focal da medula; cisto residual; patologias ósseas dos maxilares.

Resumo

Introdução: O defeito osteoporótico focal da medula é um defeito ósseo raro, de etiologia desconhecida, que produz uma imagem focal radiolúcida. Apesar de mimetizar patologias ósseas verdadeiras, raramente é mencionado no diagnóstico diferencial de lesões radiolúcidas dos maxilares. Seus achados clínicos e radiográficos, embora possam ser sugestivos, não são suficientes para estabelecer

o diagnóstico definitivo. **Objetivo:** Relatar um caso de defeito osteoporótico focal da medula que se desenvolveu em um local de uma extração dentária e mimetizou um cisto residual. **Relato de caso:** Paciente do sexo masculino, 38 anos, com queixa de dor espontânea leve, há aproximadamente um ano, apresentou em exame radiográfico uma lesão radiolúcida unilocular, de aproximadamente 1,5 cm em seu maior diâmetro, na região do dente 46, que já havia sido extraído havia 10 anos. O exame histopatológico exibiu células hematopoiéticas, tecido adiposo e algumas trabéculas ósseas sem particularidades, sendo compatível com o diagnóstico de defeito osteoporótico focal da medula. **Conclusão:** O defeito osteoporótico focal da medula é uma condição rara que pode afetar os maxilares. Sua presença em locais que foram submetidos a exodontia reforça a hipótese de que um trauma local pode ter papel no desenvolvimento dessa condição.

Keywords:

focal osteoporotic bone marrow defect; residual cyst; maxillary bone pathology.

Abstract

Introduction: Focal osteoporotic bone marrow defect is a rare bone defect of unknown etiology that produces a focal radiolucent image. Despite mimicking true bone pathologies, it is rarely mentioned in the differential diagnosis of radiolucent lesions of the jaws. Although its clinical and radiographic findings may be suggestive, are not sufficient to establish a definitive diagnosis. **Objective:** To report a case of focal osteoporotic bone marrow defect that developed at a site of tooth extraction and mimicked a residual cyst. **Case report:** A 38-year-old male patient complaining of spontaneous mild pain in the jaw for approximately one year present in the radiographic examination showed an unilocular radiolucent lesion, approximately 1.5 cm in its largest diameter, in the region of tooth 46, which had already been extracted 10 years ago. Histopathological examination showed hematopoietic cells, adipose tissue and some bone trabeculae without any particularities, being compatible with the diagnosis of focal osteoporotic bone marrow defect. **Conclusion:** Focal osteoporotic bone marrow defect is a rare condition that can affect the jaws. Its presence in places that have undergone tooth extraction reinforces the hypothesis that local trauma may play a role in the condition development.

Introdução

O defeito osteoporótico focal da medula (DOFM) foi descrito pela primeira vez por Cahn, em 1954 [11, 12, 20]. Trata-se de um defeito ósseo raro [1, 8, 12] que produz uma imagem focal radiolúcida [5, 11, 19-21]. Embora possa mimetizar patologias ósseas verdadeiras, raramente é mencionado no diagnóstico diferencial de lesões radiolúcidas dos maxilares [5, 9, 17, 18].

Sua etiologia ainda é desconhecida, no entanto algumas hipóteses têm sido propostas, como: cicatrização defeituosa após trauma ou inflamação [1, 3-9, 11, 12, 14, 16, 19-21], persistência de

remanescentes residuais da medula fetal na vida adulta [1, 3, 4, 7-9, 11, 12, 14, 20, 21] e hiperplasia da medula óssea em resposta ao aumento da demanda por eritrócitos [1, 3-5, 8, 11, 14, 19-22].

O objetivo deste trabalho é relatar um caso de DOFM que se desenvolveu em um local de uma extração dentária e que mimetizou um cisto residual.

Relato de caso

O paciente descrito foi atendido pelo Serviço de Cirurgia Bucomaxilofacial do Hospital Central da

Polícia Militar, Rio de Janeiro (RJ, Brasil) e assinou o termo de consentimento livre e esclarecido. O relato do caso foi aprovado pelo Comitê de Ética e Pesquisa da Universidade Veiga de Almeida, sob o parecer número 4.140.275.

Paciente do sexo masculino, branco, 38 anos, procurou atendimento odontológico com queixa de dor espontânea leve na mandíbula do lado direito há aproximadamente um ano e relatou não ter realizado nenhum tratamento para tal condição.

Durante a anamnese, negou uso de medicamentos, alergias, tabagismo e etilismo. Sua história médica apenas incluiu uma cirurgia de hérnia inguinal. Ao exame físico intraoral não foi observada alteração na região em que se queixava de dor, apenas ausência do dente 46, que foi extraído havia mais de 10 anos. Também não foi notada nenhuma alteração no exame físico extraoral.

O paciente tinha uma tomografia computadorizada *cone beam*, de um ano atrás, que mostrava uma lesão radiolúcida unilocular, bem definida, na região do 46, medindo aproximadamente 1,5 cm. Foi solicitada radiografia periapical da região e observou-se discreto aumento de tamanho da lesão, além de finas trabéculas ósseas no seu interior e limites imprecisos (figura 1). Foram solicitados exames laboratoriais pré-operatórios, como hemograma, tempo de protrombina, tempo de tromboplastina parcial, glicose, ureia e creatinina, que se apresentaram dentro dos valores de normalidade.

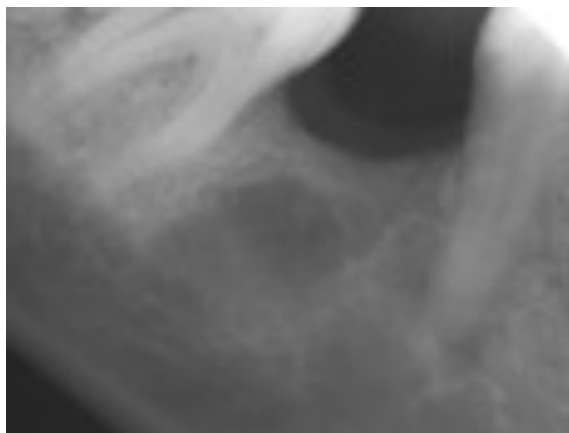


Figura 1 - Aspectos radiográficos do paciente. Radiografia periapical exibindo área radiolúcida, unilocular, com limites imprecisos, na região do 46, medindo aproximadamente 1,5 cm. É possível notar finas trabéculas ósseas no interior da imagem radiolúcida

Com base nas características clínicas e radiográficas levantaram-se duas hipóteses diagnósticas: cicatriz cirúrgica e cisto residual. O paciente foi submetido a curetagem da lesão e colocação de enxerto com biomaterial à base de hidroxiapatita bovina e colágeno do tipo I (extra graft XG-13®). A cirurgia transcorreu sem complicações, e o material curetado foi encaminhado para exame histopatológico. Após a cirurgia, em virtude da escassez do material curetado e por não apresentar aspecto macroscópico de um cisto verdadeiro, a hipótese diagnóstica foi de cisto ósseo traumático.

O material enucleado foi enviado para exame histopatológico, o qual evidenciou em cortes histológicos corados por hematoxilina e eosina (HE) células hematopoiéticas, tecido adiposo e algumas trabéculas ósseas sem particularidades (figuras 2 e 3), sendo compatível com o diagnóstico de DOFM.

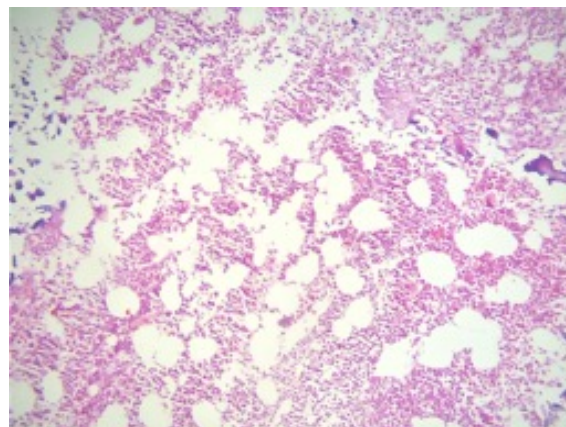


Figura 2 - Aspectos histopatológicos do paciente. Cortes histológicos corados em HE exibindo células hematopoiéticas e tecido adiposo (10x)

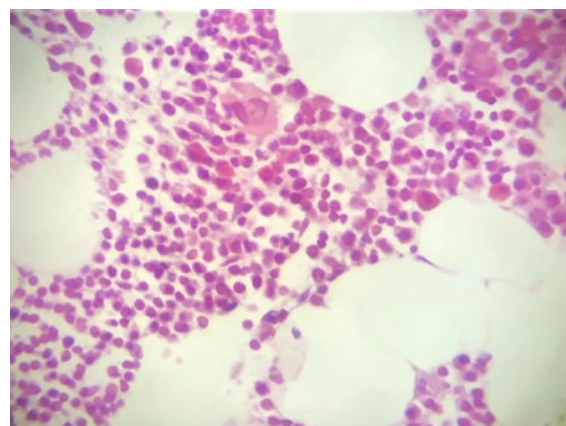


Figura 3 - Aspectos histopatológicos do paciente. Cortes histológicos corados em HE exibindo células hematopoiéticas e tecido adiposo (40x)

Na consulta de controle pós-operatório, o paciente não apresentou queixas e evoluiu sem intercorrências. Foram solicitados os exames de imagem pré-operatórios para registro fotográfico, e o paciente relatou ter perdido a tomografia computadorizada. Orientamos o retorno do paciente em seis meses para acompanhamento e, posteriormente, foi mantido sob controle anual. O paciente está em acompanhamento clínico-radiográfico há sete anos sem alterações (figuras 4 a 6).



Figura 4 - Aspectos radiográficos do paciente. Radiografia panorâmica realizada após três anos da cirurgia, mostrando o enxerto integrado ao osso adjacente e sem evidência de recorrência da lesão



Figura 5 - Aspecto clínico do paciente. Fotografia realizada após sete anos da cirurgia mostrando ausência de alterações clínicas

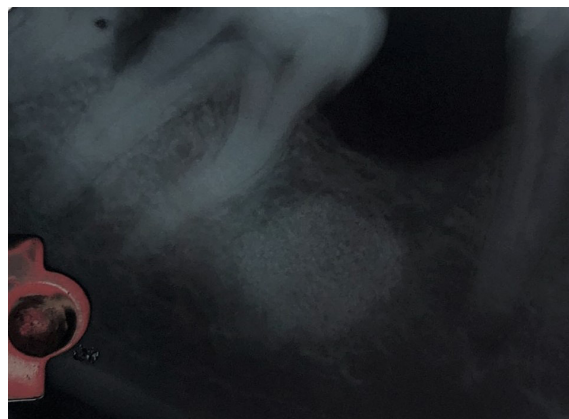


Figura 6 - Aspectos radiográficos do paciente. Radiografia periapical realizada após sete anos da cirurgia mostrando o enxerto integrado ao osso adjacente e sem evidência de recorrência da lesão

Discussão

O DOFM, uma condição benigna com etiologia desconhecida [1, 3-9, 12, 14, 16-21], frequentemente ocorre em uma região edêntula [1, 6-9, 12]. No presente caso, o paciente relatou extração dentária havia dez anos na região da lesão, o que corrobora com uma das hipóteses propostas, que indica que um estímulo local, como uma extração dentária, poderia causar a proliferação da medula óssea durante o processo de cicatrização [1, 8, 17, 19-21].

Outra hipótese também atribuída ao DOFM é da possibilidade de um foco de hematopoiese extramedular, que durante a vida adulta pode se tornar hiperplásica [8, 14, 16], por aumento da demanda de eritrócitos [3-5, 7, 9, 11, 20, 22], como em pacientes com anemia [12, 21]. Ainda que essa teoria não seja muito aceita [8, 20], alguns autores relataram casos de pacientes com distúrbios hematológicos que apresentaram DOFM [3, 18, 19, 21]. No entanto os exames laboratoriais do paciente deste caso estavam dentro dos limites da normalidade. Já a terceira teoria sugere a possibilidade de que remanescentes residuais da

medula óssea fetal possam persistir na vida adulta [1, 3-9, 11, 12, 14, 16, 19-21]. Entretanto alguns autores discordam dessa teoria [3, 20], pelo fato de a incidência do defeito não ser similar em adultos e crianças, sendo mais frequentes em indivíduos entre a 4.^a e 5.^a década de vida.

O DOFM é mais comum em mulheres, na meia idade [10, 20], sendo normalmente encontrado na região posterior da mandíbula [5, 10, 20]. Aparentemente, não possui predileção por cor da pele [12, 20], todavia alguns estudos encontraram maior prevalência em indivíduos brancos [3, 10, 20]. O caso relatado apresenta características que diferem da literatura, pois o paciente era do sexo masculino e com 38 anos de idade. A maioria dos casos é assintomático [1, 4, 5, 8, 11, 12, 17, 19-21], entretanto Lipani *et al.* [10] mencionaram dor e edema em 62% de sua amostra. Corroborando com esses últimos autores, no presente caso, o paciente afirmou sentir dor espontânea leve na mandíbula, na região do defeito, porém não foram observadas alterações clínicas na região.

Ao exame radiográfico, usualmente, a aparência do defeito é de uma área radiolúcida [12], unilocular [5, 11, 16, 19-21], sem expansão das corticais ósseas [5, 6], embora alguns casos evidenciem uma imagem multilocular [10] que varia de milímetros a centímetros de diâmetro [1, 6, 7, 9, 20], podendo exibir áreas radiopacas [1, 12, 18]. Alguns autores afirmam que a imagem radiográfica possui aparência semelhante a “vidro fosco” [4], “favos de mel” [10, 18] ou “roído de traças” [3]. Tais achados radiográficos, apesar de sugestivos, não são suficientes para o estabelecimento do diagnóstico de DOFM e podem mimetizar diversas patologias ósseas, como cistos odontogênicos [1, 5, 7-10, 12, 17, 21], tumores odontogênicos e não odontogênicos [1, 5, 7, 8, 10, 21], de natureza benigna ou até mesmo maligna [5, 7-11, 17, 20, 21], pseudocistos (cisto ósseo traumático [1, 5-9, 19-21], cisto ósseo aneurismático [8, 9, 12] e cisto de Stafne [8, 17]), lesões fibro-ósseas [1, 6, 8, 12, 21], além de lesões de natureza inflamatória [5-8, 10, 12, 17, 19, 21]. No presente caso, o exame radiográfico do paciente apresentou imagem radiolúcida, unilocular, com limites imprecisos, localizada em região do elemento 46, e duas hipóteses foram levantadas: cisto residual ou cicatriz cirúrgica. Após a curetagem da lesão, por não ter aspecto macroscópico de um cisto verdadeiro, outra hipótese diagnóstica levantada foi de cisto ósseo traumático, já que as características clínicas e radiográficas também seriam compatíveis com esse diagnóstico.

As características histopatológicas do DOFM correspondem à medula hematopoiética normal [7], com as três linhagens celulares (megacariócitos, precursores dos eritrócitos e mielócitos) em vários estágios de maturação, e com algumas células adiposas [22]. Podem também ser notados agregados linfóides [12, 14, 16] e trabéculas ósseas, sem anormalidades em suas atividades osteoblásticas e osteoclásticas [13].

Após o estabelecimento do diagnóstico, nenhum tratamento é necessário [1, 5, 8, 11, 12, 14, 16-19, 21, 22]; o prognóstico é excelente [13]. Em casos nos quais a destruição óssea é extensa, a colocação de uma fixação na mandíbula é recomendada para prevenir uma possível fratura patológica [8]. No caso relatado realizou-se a colocação de enxerto com biomaterial à base de hidroxiapatita bovina e colágeno do tipo I, a fim de melhorar a qualidade óssea para futuro implante, além de reconstruir a fenestração causada pela biópsia.

Um acompanhamento radiológico é recomendado [8, 9, 11, 17], com o intuito de verificar a cicatrização óssea [17]. Como as radiografias periapicais são fáceis de usar, acessíveis e de baixo custo, elas são o principal método diagnóstico e de acompanhamento para avaliação de lesões intraósseas em regiões periapicais [15]. Já as radiografias panorâmicas fornecem informações diagnósticas relevantes, visto se tratar de um método radiológico que contém imagem da maxila e mandíbula e suas estruturas em uma mesma imagem [2], possibilitando uma avaliação mais ampliada. É, portanto, uma excelente técnica radiográfica para inspeção. Além disso, é importante a execução de um acompanhamento radiográfico, a fim de que se possa observar a evolução da lesão e sua relação com estruturas adjacentes em variados períodos.

Conclusão

O DOFM é uma condição rara que pode afetar os maxilares. Sua presença em locais que foram submetidos a exodontia reforça a hipótese de que um trauma local pode ter papel no desenvolvimento da condição. Raramente é mencionado no diagnóstico diferencial de lesões radiolúcidas e, embora os achados radiográficos possam ser sugestivos, não são suficientes para o estabelecimento do diagnóstico do DOFM. Para o diagnóstico definitivo, recomenda-se realizar exame histopatológico. Após o estabelecimento do diagnóstico, nenhum tratamento é necessário, além disso, o prognóstico da lesão é excelente.

Referências

1. Almeida LY, Kato RB, Ribeiro MC, León JE. Focal osteoporotic bone marrow defect mimicking a mandibular cystic lesion. *J Craniofac Surg.* 2014;25:e324-6.
2. Arslan ZB, Demir H, Berker Yıldız D, Yaşar F. Diagnostic accuracy of panoramic radiography and ultrasonography in detecting periapical lesions using periapical radiography as a gold standard. *Dentomaxillofac Radiol.* 2020;49:20190290.
3. Barker BF, Jensen JL, Howell FV. Focal osteoporotic bone marrow defects of the jaws. An analysis of 197 new cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1074;38:404-13.
4. Chiang C-P, Yang H, Chen H-M. Focal osteoporotic marrow defect of the maxilla. *J Formos Med Assoc.* 2015;114:192-4.
5. Correll RW, Wescott WB. Asymptomatic, ill-defined radiolucent area in the posterior body of the mandible. *J Am Dent Assoc.* 1983;107:460-1.
6. Garcia NG, Barros FBA, Carvalho MMD, Oliveira DT. Focal osteoporotic bone marrow defect involving dental implant: a case report. *Int J Implant Dent.* 2015;1:18.
7. Gordy FM, Crews KM, Carroll MKO. Focal osteoporotic bone marrow defect in the anterior maxilla. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1993;76:537-42.
8. Jeyaraj P. An interesting and unusual case of bilateral focal osteoporotic bone marrow defects (FOBMD) of the mandible, which resolved after biopsy. *J Oral Maxillofac Surg Med Pathol.* 2014;27:427-31.
9. Lee S-C, Jeong C-H, Im H-Y, Kim S-Y, Ryu J-Y, Yeom H-Y et al. Displacement of dental implants into the focal osteoporotic bone marrow defect: a report of three cases. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg.* 2013;39:94-9.
10. Lipani CS, Natiella JR, Greene GW. The hematopoietic defect of the jaws: a report of sixteen cases. *J Oral Pathol.* 1982;11:411-6.
11. Makek M, Lello GE. Focal osteoporotic bone marrow defects of the jaws. *J Oral Maxillofac Surg.* 1986;44:268-73.
12. Medeiros Abraham NM, Brandão SCO, Câmara J, Martins VB, Oliveira LC, Libório-Kimura TN. Focal osteoporotic bone marrow defect with unusual presentation. *Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac.* 2016;57:183-8.
13. Neville B, Allen C, Damm D, Chi A. *Oral and maxillofacial pathology.* 4 ed. Elsevier; 2016.
14. Philbert RF, Sandhu NS. Nonodontogenic cysts. *Dent Clin North Am.* 2020;64:63-85.
15. Raghav N, Reddy SS, Giridhar AG, Murthy S, Yashodha Devi BK, Santana N et al. Comparison of the efficacy of conventional radiography, digital radiography, and ultrasound in diagnosing periapical lesions. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 2010;110:379-85.
16. Regezi J, Sciubba J, Jordan R. *Patologia oral: correlações clinicopatológicas.* 7 ed. Elsevier/Saunders; 2017.
17. Sa'do B, Ozeki S, Higuchi Y, Nakayama E. Osteoporotic bone marrow defect of the mandible: report of a case diagnosed by computed tomography scanning. *J Oral Maxillofac Surg.* 1992;50:80-2.
18. Schneider LC, Mesa ML, Fraenkel D. Osteoporotic bone marrow defect: radiographic features and pathogenic factors. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1988;65:127-9.
19. Sencimen M, Delilbasi C, Gulses A, Okcu KM, Gunhan O, Varol A. Focal osteoporotic hematopoietic bone marrow defect formation around a dental implant: a case report. *Int J Oral Maxillofac Implants.* 2011;26:e1-4.
20. Shankland WE, Bouquet JE. Focal osteoporotic marrow defect: report of 100 new cases with ultrasonography scans. *Cranio.* 2004;22:314-9.
21. Wilson DF, D'Rozario R, Bosanquet A. Focal osteoporotic bone marrow defect. *Aust Dent J.* 1985;30:77-80.
22. Woo S. *Oral pathology: a comprehensive atlas and text.* 1 ed. Elsevier/Saunders; 2012.