

## Peripheral ossifying fibroma – case report

### Obwodowy włókniak kostniejący – opis przypadku

Krzysztof Lipczyński<sup>1</sup>, Rafał Pokrowiecki<sup>1</sup>, Małgorzata Zaleska<sup>1</sup>,  
Katarzyna Urbańczyk<sup>2</sup>

<sup>1</sup> Zakład Chirurgii Stomatologicznej, Instytut Stomatologii, Wydział Lekarski, Uniwersytet Jagielloński Collegium Medicum, Kraków, Polska  
Department of Oral Surgery, Dental Institute, Faculty of Medicine, Jagiellonian University Medical College, Cracow, Poland  
Head: dr hab. M. Zaleska

<sup>2</sup> Zakład Patomorfologii Klinicznej i Doświadczalnej, Katedra Patomorfologii, Wydział Lekarski, Uniwersytet Jagielloński Collegium Medicum, Kraków, Polska  
Department of Clinical and Experimental Pathomorphology, Department of Pathomorphology, Faculty of Medicine, Jagiellonian University Medical College, Cracow, Poland  
Head: prof. D. Adamek

#### Abstract

*Peripheral ossifying fibroma is a lesion of the gingival tissues representing up to 2-3% of all oral lesions that are biopsied. This tumour is seen very seldom and usually occurs in the gingiva of the front maxilla and resembles other epulis-like lesions. The treatment of choice is radical excision of the tumour. In cases when significant post-operative soft or hard tissue deficiency is present, reconstruction treatment by means of free tissue grafts or local flap surgery is required. Data from the literature indicates up to 20% recurrence of the tumour, especially following non-radical excision. Histologically, this tumour is composed of squamous epithelium, fibroblast component, foci of calcification and bone tissue in the centre. A rare case of peripheral ossifying fibroma, which was localised in the oral vestibule in front mandible, is presented here. The lesion was present in the oral cavity for over twenty years. The surgical procedure is illustrated with photographic records and histopathological images of this case.*

#### Streszczenie

*Obwodowy włókniak kostniejący to rzadki guz wywodzący się z tkanek miękkich, występujący w około 2-3% opisywanych przypadków zmian obecnych w kościach szczęk. Guz ten zazwyczaj występuje w okolicy dziąsła górnego przypominając inne zmiany o typie nadziąsłaków. Leczeniem z wyboru jest radykalne wycięcie guza. W przypadku powstawania pozabiegowego ubytku tkanek twardych lub miękkich, w niektórych przypadkach wskazane jest przeprowadzenie zabiegów rekonstrukcyjnych za pomocą przeszczepów tkanek miękkich lub lokalnej plastyki. Dane z piśmiennictwa wskazują prawie 20% tendencję guza do wznowy, zwłaszcza po nieradykalnym jego usunięciu. Histologicznie jest on zbudowany z ubogokomórkowej komponenty fibroblastycznej, ognisk zwapnienia oraz centralnie zlokalizowanej tkanki kostnej oraz jest pokryty nabłonkiem wielowarstwowym płaskim jamy ustnej. W pracy przedstawiono przypadek obwodowego włókniaka kostniejącego umiejscowionego w przedniej części dolnego zachyłka przedsionka jamy ustnej, który obecny był w jamie ustnej przez ponad 20 lat. W pracy przedstawiono również dokumentację fotograficzną dotyczącą procedury chirurgicznej, jak również obrazu mikroskopowego przedstawiającego budowę histologiczną usuniętego guza.*

#### KEYWORDS:

peripheral ossifying fibroma, oral cavity, epulis

#### HASŁA INDEKSOWE:

peripheral ossifying fibroma, jama ustna, nadziąsłak

## Introduction

Peripheral ossifying fibroma (POS) is a rare lesion whose incidence varies from approximately 2-3% of oral tumours.<sup>1,2</sup> The aetiology of POS is not completely known but it is believed that the lesion is of reactive aetiology. This tumour is thus not a variant of peripheral fibroma ossificans (ossifying fibroma), which is an odontogenic neoplasm.<sup>3</sup> POS probably develops from periodontal tissues as a result of chronic periodontal injuries or inflammatory process. Clinically, the most common localization of the lesion is anterior maxillary gingiva, and therefore it may be considered to belong to the differential group of epuli. POS is approximately 9.6% of histologically reactive tumour-like lesions of the gums.<sup>4</sup> The treatment of choice is surgical total removal of the tumour. Recurrence rate after subtotal removal is high, approximately 8-20% of cases.<sup>5</sup>

## Case report

A 67-year-old woman was referred to the Oral Surgery Dept. of University Dental Clinic in Cracow with the diagnosis of a tumour of the oral cavity vestibule. The patient reported that she had noticed the slowly growing tumour of the oral cavity about twenty years earlier. However, she did not undergo any treatment. Recently, the tumour began to impede speech, eating and the use of removable dentures.

The general condition of the patient was quite good except for regular treatment of hypertension. The tumour was the cause of facial asymmetry, manifesting extraorally as lower lip emphasis on the right side (Fig. 1). Lymph nodes were not palpable. Intraoral tumour was found in the lower buccal sulcus of oral cavity in the area corresponding to lower incisors, with a narrow pedicle, size approx 27x30 mm covered with normal mucosa (Fig. 2). The tumour tension was similar to bone tissue.

Orthopantomogram revealed no pathological changes in the supporting structures of the jawbones. However, semi-radiolucent shadow of the tumour with osteosclerotic saturation area was noticed. The lesion had no connection

## Wstęp

Obwodowy włókniak kostniejący (peripheral ossifying fibroma – POS) jest rzadkim guzem, którego częstość występowania określana jest w danych z piśmiennictwa na ok. 2-3% guzów jamy ustnej.<sup>1,2</sup> Etiologia guza nie jest do końca poznana, choć obecnie uważa się, że jest on zmianą reaktywną. Guz ten nie jest zatem odmianą obwodową włókniaka kostniejącego (ossifying fibroma), który jest nowotworem zębopochodnym.<sup>3</sup> POS wywodzi się najprawdopodobniej z tkanek ozębnej na skutek przewlekłe występujących urazów w danej okolicy bądź stanów zapalnych. Klinicznie, najczęściej zlokalizowany jest na dziąśle przedniego odcinka szczęki, a zatem mieści się w grupie różnicowej nadziąsłaków. Jednocześnie stanowi ok. 9,6% badanych histologicznie reaktywnych zmian guzowatych dziąseł.<sup>4</sup> Leczeniem z wyboru jest doszczętne chirurgiczne usunięcia guza. Nawrotowość po nieradykalnym usunięciu jest duża i wynosi około 8-20% przypadków.<sup>5</sup>

## Opis przypadku

Do Poradni Chirurgii Stomatologicznej Uniwersyteckiej Kliniki Stomatologicznej w Krakowie skierowano 67-letnią kobietę z rozpoznaniem guza przedsionka jamy ustnej. Pacjentka podała, że wolno powiększający się guz jamy ustnej zauważyła przed około dwudziestu laty i nie była leczona z tego powodu. Ostatnio guz zaczął utrudniać mowę, spożywanie pokarmów oraz użytkowanie ruchomych protez zębowych.

Stan ogólny pacjentki był dość dobry, pozostawała jedynie w regularnym leczeniu choroby nadcisnieniowej. W badaniu zewnątrzustnym widoczna była jedynie asymetria wargi dolnej po stronie prawej spowodowana wewnątrzustnym guzem (Fig. 1). Węzły chłonne były niewyczuwalne. Wewnątrzustnie stwierdzono widoczny guz dolnego zachyłka przedsionka jamy ustnej w okolicy odpowiadającej zębom siecznym, o wąskiej szypule, wielkości ok 27x30 mm pokryty prawidłową błoną śluzową (Fig. 2). Guz miał spistość podobną do tkanki kostnej.

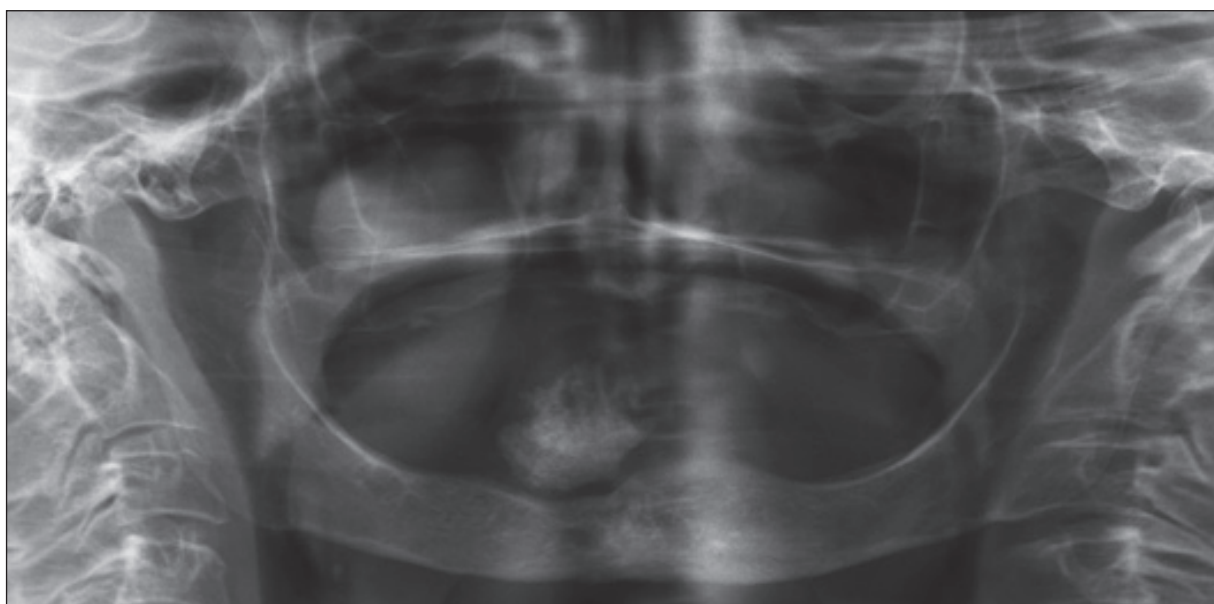
Badanie ortopantomograficzne nie wykazało zmian w strukturze kostnej szczęki i żuchwy. Na jamę ustną właściwą rzutował się cień guza



**Fig. 1.** Extraoral photograph of the patient (description in the text).  
Zdjęcie zewnątrzustne pacjentki (opis w tekście).



**Fig. 2.** Pedunculated tumour located in the lower buccal sulcus.  
Uszypułowany guz zlokalizowany w przedzionku jamy ustnej.



**Fig. 3.** Ortopantomograph picture (description in the text).  
Zdjęcie ortopantomograficzne, obraz radiologiczny guza (opis w tekście).

with the alveolar part of the mandible (Fig. 3).

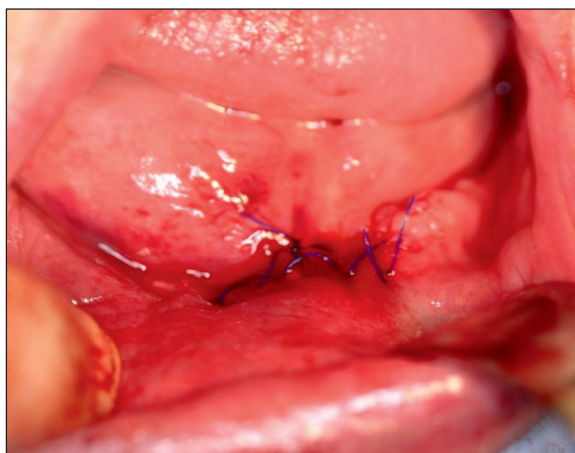
Under local infiltrative and truncular anaesthesia (4 ml of articaine and adrenaline 1:200,000 solution) excision of the tumour was performed at the base of the connective tissue pedicle. Curettage of the tumour lodge was performed and the wound was stitched with single-interrupted sutures and a haemostatic gauze was applied (Fig. 4). Operating material was sent for histopathological examination (Fig. 5). Histopathological examination (No.

z obszarem wysyconym osteosklerotycznie, nie mający połączenia z częścią zębodołową żuchwy (Fig. 3).

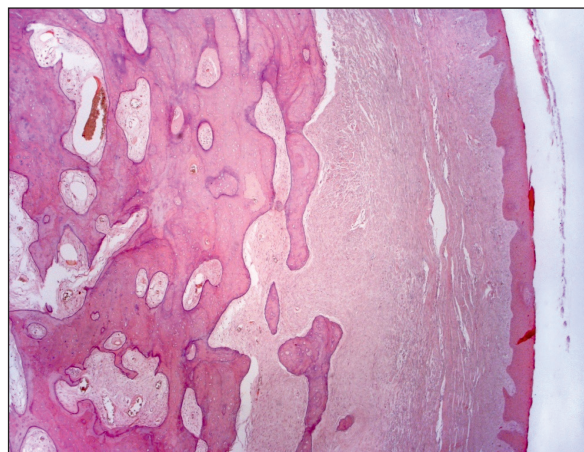
W znieczuleniu miejscowym nasiękowym i przewodowym 4 ml artykainy w stężeniu 1:200 000 wycięto zmianę w całości u podstawy łącznotkankowej szypuły. Łoże guza wyłęczkowano, ranę zeszyto szwami węzłkowymi oraz założono opatrunek hemostatyczny (Fig. 4). Materiał operacyjny przesłano do badania histopatologicznego



**Fig. 4.** Excised tumour 27 x 30 mm in diameter.  
Wycięty guz o średnicy 27 x 30 mm.



**Fig. 5.** Postoperative wound with sutures.  
Rana pooperacyjna zaopatrzona szwami.



**Fig. 6.** Microscopic view of the tumour. The tumor was composed of mature fibrous tissue covered by normal squamous epithelium with central osseous metaplasia (lamellar bone). Between trabeculae a vascular loose connective tissue was present. Decalcified, HE, 10x.

Obraz mikroskopowy wyciętego guza. Guz zbudowany z dojrzałej tkanki włóknistej, pokryty był nabłonkiem wielowarstwowym płaskim nierogowaciejącym. W części środkowej znajdował się obszar metaplastji kostnej z wytworzeniem dojrzałej kości blaszkowatej. W przestrzeniach międzybeleczkowych obecna była luźna tkanka łączna, dobrze unaczyniona. Materiał barwiony hematoxyliną i eozyną, odwapniacz, powiększenie 10x.

1,859,884 – Department of Pathology, Jagiellonian University): *fibroma ossificans periphericum*. The postoperative course was uneventful. A month after surgery soft tissue defect healed. The patient is periodically reviewed and implementation of new dentures was advised.

(Fig. 5). Wynik badania histopatologicznego (nr 1859884 – Katedra Patomorfologii CMUJ): *fibroma ossificans periphericum*.

Przebieg pooperacyjny był bez powikłań. Po około miesiącu od zabiegu ubytek tkanek miękkich wygoił się. Pacjentka pozostaje w stałej obserwacji, zalecono wykonanie nowych uzupełnień protetycznych.

## Dyskusja

Włókniak kostny obwodowy (peripheral ossifying fibroma – POS) jest rzadką nienowotworową zmianą reaktywną, której częstość występowania w piśmiennictwie określana jest na około 2-3% wszystkich guzów kości szczęk.<sup>1,2</sup> Należy zatem zaznaczyć, że według obecnie obowiązującej klasyfikacji WHO z 2005 r. nie jest on obwodową odmianą włókniaka kostniejącego, który rozwija się wewnątrz kości i jest guzem nowotworowym.<sup>3</sup>

POS zazwyczaj zlokalizowany jest w okolicy dziąsła przedniego odcinka szczęki i klinicznie może przypominać inne zmiany o typie nadziąsłaków: włókniaka obwodowego (peripheral fibroma), obwodową zmianę olbrzymiokomórkową (peripheral giant cell granuloma), ziarniniaka ropotwórczego (pyogenic granuloma) lub guzy zębopochodne.<sup>4,6</sup> Ziarniniak ropotwórczy uznawany jest przez niektórych autorów za wczesną, niedojrzałą postać opisywanego guza, któ-

## Discussion

Peripheral ossifying fibroma – POS is a rare reactive lesion whose incidence is estimated at about 2-3% of all tumours of the jaws.<sup>1,2</sup> According to current WHO classification of 2005, this lesion is not a variant of the peripheral ossifying fibroma of bone, which develops inside the bone and is considered to be a neoplasm.<sup>3</sup> POS is usually located in the anterior maxillary gingiva and clinically resembles other lesions of the epuli type: peripheral fibroma, peripheral giant cell granuloma, pyogenic granuloma or odontogenic tumours.<sup>4,6</sup> Some authors consider pyogenic granuloma to be the early, immature form of POS which exhibits more abundant vascularity in the histopathological findings.<sup>7</sup> POS is typically characterized by a long-standing medical history, which explains the presence of foci of calcification and mineralization occurring after full maturation of fibrous tissue.<sup>3,7</sup> The presence of mineralized tissue in POS is characteristic and distinguishes it from other tumours resembling bone on physical examination. The tumour size generally does not exceed 20 mm. Rarely, including the herein described case, the tumour can achieve significantly larger sizes.<sup>5</sup>

It is believed that POS is a lesion of reactive origin, derived from the periodontal tissues, that is why histological findings show the presence of oxytalan fibers. The aetiology of the tumour is also supported by localization of the lesion and the fact that the incidence of POS is inversely proportional to the number of teeth.<sup>8</sup> The tumour is characterized by predilection to females and develops most frequently in the third-fourth decade of life, or during puberty or pregnancy.<sup>9</sup>

The tumour consists of paucicellular fibroblast component, foci of calcification and lamellar or woven bone in the centre of the lesion with no fibrous capsule. POS is most commonly covered with normal squamous epithelium (Fig. 6). The lesion grows slowly and is not accompanied by the bone destruction of the substrate.<sup>5,10</sup>

The treatment of choice is the total surgical removal of the tumour. Non-radical excision is the most common cause of recurrence assessed at approximately 20%.<sup>5,11</sup> If teeth are present in the area of the tumour there is no need to

ra w budowie histologicznej wykazuje większe unaczynienie.<sup>7</sup> POS zazwyczaj charakteryzuje się wieloletnim wywiadem, co tłumaczy obecność ognisk wapnienia i mineralizacji występujących po osiągnięciu przez fibroblasty dojrzałości.<sup>3,7</sup> Obecność zmineralizowanej tkanki odpowiada zatem za charakterystyczną i odróżniającą go od pozostałych guzów spoistość, przypominającą w badaniu palpacyjnym tkankę kostną. Rozmiar guza zazwyczaj nie przekracza 20 mm. Rzadziej, w tym także w opisywanym w niniejszej publikacji przypadku, może osiągnąć znacznie większe rozmiary.<sup>5</sup>

Uważa się, że guz jako zmiana reaktywna, wywodzi się z tkanek ozębnej, o czym świadczy spotykana w obrazie histologicznym obecność włókien oksytalanowych, charakterystyczna lokalizacja zmiany oraz fakt, że częstość występowania guza jest odwrotnie proporcjonalna do liczby uzębienia.<sup>8</sup> Guz charakteryzuje się predylekcją do płci żeńskiej i rozwija się najczęściej w trzeciej-czwartej dekadzie życia bądź w okresach takich jak dojrzewanie płciowe czy ciąża.<sup>9</sup>

W budowie histologicznej guza nie występuje łącznotkankowa torebka, ubogokomórkowego składnika fibroblastycznego, ognisk zwapnień, a w centrum guza tkanki kostnej. Jest pokryty nabłonkiem wielowarstwowym płaskim śluzówki jamy ustnej (Fig. 6). Guz rozwija się powoli i nie towarzyszy mu destrukcja kości podłoża.<sup>5,10</sup>

Metodą leczenia z wyboru jest doszczętne chirurgiczne usunięcie guza. Nieradykalność zabiegu jest przyczyną nawrotów ocenianych na ok. 20%.<sup>5,11</sup> W przypadku gdy w okolicy guza obecne są zęby, które nie wykazują wzmożonej ruchomości oraz nie stwierdza się zaniku kości w badaniu radiologicznym, nie ma konieczności ich usunięcia.<sup>12</sup> Przed zabiegiem chirurgicznym należy usunąć wszelkie czynniki drażniące, takie jak kamień nazębny czy nieprawidłowe wypełnienia mogące być czynnikiem etiologicznym jego rozwoju. W przypadku powstawania pozabiegowego ubytku tkanki kostnej i miękkiej, w niektórych przypadkach konieczne jest wykonanie zabiegów odtwórczych z zastosowaniem plastyki płatowej z otoczenia bądź zastosowania wolnych przeszczepów.<sup>13</sup>

perform extractions, unless they are of increased mobility and evidence of bone loss is confirmed radiographically.<sup>12</sup> Prior to surgery, any irritants such as tartar or incorrect fillings that can be an aetiological factor of POS development should be removed. In the case of postoperative bone and/or soft tissues loss, it may be necessary to perform reconstructive procedures using local flap surgery or free tissue grafts.<sup>13</sup>

## Summary

Although peripheral ossifying fibroma (POS) is not classified as a neoplasm, general practitioners of all specialties should be oncologically vigilant. It must be also noted that only proper histopathological examination of the operative material may reveal the tumour nature. Therefore, a holistic approach to patient treatment should be always performed. In the case described, the patient was treated on a regular basis due to hypertensive disease. However, only dramatic expansion of the tumour that was a cause of impaired speech and eating made the patient seek dental help. The case of the POS presented in this work confirms the classic feature of the tumour such as: duration period, clinical manifestation, histopathological findings and effective treatment of choice. In the presented case there were no indications for reconstructive surgery after tumour excision.

## Podsumowanie

Pomimo, że obwodowy włókniak kostniejący nie jest zaliczany do nowotworów, lekarze wszystkich specjalności powinni wykazywać czujność onkologiczną, gdyż dopiero badanie histopatologiczne całości materiału operacyjnego może ujawnić charakter guza. Konieczne jest też holistyczne podejście do stanu zdrowia pacjenta. W opisanym przypadku pacjentka regularnie była leczona z powodu choroby nadciśnieniowej, jednak dopiero dramatyczne powiększenie się zmiany utrudniającej mowę i jedzenie spowodowało, że zaczęła szukać pomocy stomatologicznej. Opisany przez nas przypadek POS potwierdza klasyczne cechy tego guza, takie jak wieloletni wywiad, kliniczna manifestacja guza, obraz mikroskopowy oraz skuteczność wykorzystanej metody leczniczej. W opisanym przypadku nie było konieczności stosowania technik rekonstrukcyjnych tkanek po usunięciu guza.

## References

1. *Batsakis JG*: Non-odontogenic tumors: clinical evaluation and pathology. In: Thawley SE, Panje WR, Batsakis JG, Lindberg RD, editors. Comprehensive management of head and neck tumors. 2nd ed. Philadelphia: W.B. Saunders; 1999. p. 1641-1642.
2. *Mishra MB, Bhishen KA, Mishra S*: Peripheral ossifying fibroma. *J Oral Maxillofac Pathol* 2011; 15: 65-68.
3. *Kaczmarzyk T, Stypulkowska J, Tomaszewska R, Czopek J*: Nowotwory zębopochodne i guzy nowotworowe kości szczęk. Warszawa: Kwintesencja; 2009. p. 145-147.
4. *Poonacha KS, Shigli AL, Shirol D*: Peripheral ossifying fibroma: a clinical report *Contemp Clin Dent* 2010; 1: 54-56.
5. *Childers EL, Morton I, Fryer CE, Shokrani B*: Giant peripheral ossifying fibroma: a case report and clinicopathologic review of 10 cases from the literature. *Head Neck Pathol* 2013; 7: 356-60.
6. *Pradeep AR, Guruprasad CN, Agarwal E*: Peripheral ossifying fibroma: case report. *NY State Dent J* 2012; 78: 52-55.
7. *García de Marcos JA, García de Marcos MJ, Arroyo Rodríguez S, Chiarri Rodrigo J, Poblet E*: Peripheral ossifying fibroma: a clinical and im-

- munohistochemical study of four cases. *J Oral Sci* 2010; 52: 95-99.
8. *Kumar SK, Ram S, Jorgensen MG, Shuler CF, Sedghizadeh PP*: Multicentric peripheral ossifying fibroma. *J Oral Sci* 2006; 48: 239-243.
  9. *Whitaker SB, Bouquot JE*: Estrogen and progesterone receptor status of central giant cell lesions of the jaws. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*; 1994; 77: 641-644.
  10. *Livada R, Fine N, Anderson KM, Shiloah J*: An unusual case of gingival enlargement: peripheral odontogenic fibroma. *Compend Contin Educ Dent* 2013; 34: 87-90.
  11. *Buduneli E, Buduneli N, Unal T*: Long-term follow-up of peripheral ossifying fibroma: report of three cases. *Periodontal Clin Investig* 2001; 23: 11-14.
  12. *Marx RE, Stern D*: Oral and maxillofacial pathology: a rationale for diagnosis and treatment. Chicago: Quintessence; 2003. p. 23-25.
  13. *Stypulkowska J, Kaczmarzyk T, Zaleska-Szczurek M, Galazka K*: Peripheral cemento-ossifying fibroma – rzadka postać guza zębopochodnego. Opis przypadku i analiza kliniczнопatologiczna. *Czas Stomatol* 2004; 57: 347-351.

Address: 30-155 Kraków, ul. Montelupich 4

Tel.: +4812 4245468

e-mail: [chirstom@cm-uj.krakow.pl](mailto:chirstom@cm-uj.krakow.pl)

Received: 18<sup>th</sup> February 2015

Accepted: 30<sup>th</sup> April 2015