

Fibroma aponeurótico ossificante: relato de caso

Calcifying aponeurotic fibroma: a case report

1. Universidade Estadual de Campinas, Campinas, SP, Brasil.
2. Instituto Vita, São Paulo, SP, Brasil.
3. Hospital Sírio-Libanês, Brasília, DF, Brasil.

RESUMO

O fibroma aponeurótico calcificante (FAC) é uma lesão rara que pode acometer os pés, devendo ser considerado como diagnóstico diferencial dos tumores plantares. O tratamento é dado pela ressecção cirúrgica, sendo o diagnóstico definitivo comprovado pela análise histopatológica. O presente relato de caso mostra a apresentação e tratamento de um paciente de 17 anos com FAC e, ressalta a importância do planejamento adequado com base em imagens para diminuir riscos e postergar as recidivas.

Nível de Evidência V; Estudos Terapêuticos; Opinião do Especialista.

Palavras-chave: Fibroma; Pé; Tumor; Cirurgia.

ABSTRACT

Calcifying aponeurotic fibroma (CAF) is a rare lesion that can affect the feet and should be considered as a differential diagnosis of plantar tumors. The treatment is given by surgical resection, and the definitive diagnosis is confirmed by histopathological analysis. This case report shows a 17-year-old patient with CAF, the concept of the treatment performed, and emphasizes the importance of proper imaging planning to reduce risks and recurrence.

Level of Evidence V; Therapeutic Studies; Expert Opinion.

Keywords: Fibroma; Foot; Tumor; Surgery.

Como citar esse artigo: Oliveira LB, Maranhão D, Garofo KV, Mattos e Dinato MC. Fibroma aponeurótico ossificante: relato de caso. Sci J Foot Ankle. 2019;13(4):264-8.

INTRODUÇÃO

O fibroma aponeurótico calcificante (FAC) é um tumor benigno raro, de origem fibroblástica com comportamento localmente agressivo⁽¹⁾ e que tipicamente desenvolve-se na fáscia e tendões da palma das mãos ou na planta dos pés em crianças e adolescentes. O pico de incidência é entre 8 e 14 anos, embora tenha sido descrito em várias faixas etárias e é duas vezes mais frequente no sexo masculino que no feminino⁽²⁻⁵⁾. Os locais principais de acomen-

timento são as mãos (77% de envolvimento nas palmas e dedos) e os pés (13%)⁽⁶⁾. O tumor classicamente apresenta-se como uma massa indolor, localmente agressiva, subcutânea, mal delimitada, firme, de crescimento lento, não aderida à pele, mas sim ao tecido subcutâneo adjacente⁽⁶⁾. É rara a transformação maligna, embora já tenha sido descrita a transformação para fibrossarcoma^(2,7), assim como metástases para osso e pulmões. A lesão não é facilmente identificada nas radiografias. A avaliação complemen-

Trabalho realizado no Instituto Vita, São Paulo, SP, Brasil.

Correspondência: Larissa Barbosa Oliveira. Rua Mato Grosso 306, 1º andar, Higienópolis, São Paulo, SP, Brasil. CEP: 01239-040

Conflito de interesses: não há. **Fonte de financiamento:** não há.

Data de recebimento: 19/11/2019. **Data de aceite:** 18/12/2019. **Online em:** 23/12/2019.



Copyright © 2019 SciJFootAnkle

tar mais recomendada para diagnóstico e planejamento pré-operatório é a ressonância magnética (RM), que permite avaliar a extensão às margens da lesão e a complexidade das calcificações^(1,7,8).

Diagnósticos diferenciais do FAC são o sarcoma sinovial, sarcoma pleomórfico indiferenciado, principalmente nas mãos e punhos⁽⁹⁾, sarcoma epitelióide, sarcoma de células claras, tumor de células gigantes da bainha do tendão, condroma de partes moles, fibromatose palmar ou plantar, neuroma de Morton e tumor da bainha de nervo periférico (Schwanoma). O tratamento recomendado é a excisão cirúrgica completa com margem oncológica^(6,7), seguida de análise histológica e estudo imuno-histoquímico⁽⁸⁾. Devido ao padrão localmente invasivo, o FAC apresenta altas taxas de recorrência após a excisão cirúrgica^(1,3,5).

Nosso objetivo é apresentar o relato de um caso de FAC e o conceito do tratamento realizado. Adicionalmente, apresentamos uma revisão da literatura sobre o FAC de forma a ressaltar a possibilidade desse diagnóstico específico, dentro dos diagnósticos diferenciais dos tumores que acometem o pé.

RELATO DE CASO

Este trabalho obteve aprovação do Comitê de Ética, com registro na Plataforma Brasil, sob o número do CAAE: 23237719.7.0000.5404 e segue as diretrizes nacionais e internacionais de ética em pesquisa envolvendo seres humanos. O paciente assinou o termo de consentimento livre e esclarecido.

O paciente era um adolescente de 17 anos com queixa de dor esporádica e tumoração na região plantar do antepé esquerdo há sete anos. O quadro apresentou-se sem história de trauma e foi lentamente progressivo, com piora da dor durante atividade física. Ao exame, foi evidenciada tumoração de consistência moderadamente endurecida na região plantar abaixo do primeiro metatarsais, justaposta ao sesamoide lateral. Havia presença de hálux valgo interfalângico, sem alterações da pele ou alterações vasculonervosas nem instabilidade do primeiro raio. A suspeita clínica inicial era que houvesse um tumor relativamente profundo e aderido ou luxação sesamoidal fixa. Foram solicitadas radiografias e a ressonância magnética do antepé esquerdo.

Na radiografia inicial (Figura 1), notam-se alargamento do espaço entre o primeiro e o segundo metatarsais no pé esquerdo, posicionamento normal dos sesamoides e hálux valgo interfalângico. É possível observar pequenas calcificações proximalmente entre o primeiro e segundo metatarsais.

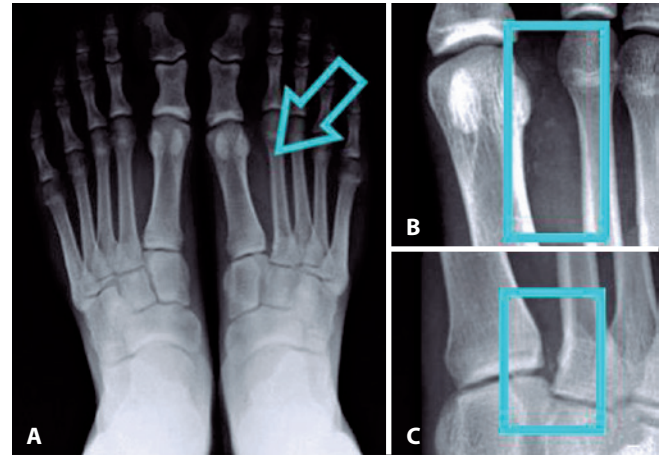


Figura 1. A - Radiografia AP com carga, com discreto alinhamento em varo do 1º metatarsal à esquerda, assimétrico, com aumento do espaço intermetatarsal (seta). B - Em detalhe, as calcificações entre a cabeça do primeiro e segundo metatarsais. C - Em detalhe, as calcificações entre as bases do primeiro e segundo metatarsais junto à articulação de Lisfranc.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

No exame de ressonância magnética (Figura 2), foi identificada uma lesão tumoral alongada e lobulada, adjacente ao contorno plantar do sesamoide lateral do hálux, com múltiplos focos calcificados intralésionais. O tumor estendia-se proximalmente para o ventre medial do flexor curto do hálux e para gordura plantar subjacente, com dimensões de 4,0cm de comprimento x 1,9cm de profundidade x 1,8cm de largura. O sinal era predominantemente de baixa intensidade em T1 e T2, com evidência de realce após a administração de contraste paramagnético, principalmente nas seqüências tardias. Havia ainda outra pequena lesão com as mesmas características junto ao contorno plantar e lateral da primeira articulação tarsometatarsica, junto à inserção do tendão fibular longo. Potencialmente, a lesão tumoral não apresentava sinais de agressividade, compatível com o longo tempo de evolução clínica, e foi considerada uma possível natureza vascular com componente calcificado/fibroso como hipótese diagnóstica.

O tratamento realizado foi a excisão cirúrgica completa da massa plantar no antepé adjacente ao sesamoide lateral, inclusive com a ressecção do sesamoide. Durante a ressecção, foi confirmada a extensão tumoral ao flexor longo do hálux. O tumor acometeu o tendão, os tecidos fibroadiposo e muscular, estendendo-se até o periósteo do primeiro metatarsal, mas sem infiltrá-lo, optando-se, assim, por não ressecar a margem desse osso. A análise anatomicopatológica identificou proliferação fusocelular mode-



Figura 2. Imagens da RNM com cortes axiais, com sinal de baixa e moderada intensidade em T2 (A) e com sinal de baixa intensidade em T1 (B), evidencia lesão tumoral plantar e lateral ao primeiro raio, com múltiplos focos calcificados intralasionais sugestiva (seta). Imagem pós-contraste, axial em T2 (C), com o tumor plantar e lateral ao sesamoide lateral, com realce após contraste (seta), com extensão proximal através do ventre medial do flexor curto do hálux (D; seta). Nos cortes coronais em T2 pós-contraste, nota-se presença de lesão no primeiro espaço intermetatarsal distalmente (E; seta) e proximalmente (F; seta), junto à articulação de Lisfranc.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

radamente celular fasciculada, esclerosante e infiltrativa, com formação de nódulos de matriz condroide calcificada, metaplasia calcificada e metaplasia cartilaginosa e óssea, estabelecendo o diagnóstico como FAC.

No seguimento inicial, o paciente evoluiu sem sintomas, dor ou novas tumorações, retomando a prática de atividades físicas após a cicatrização da ferida. Na radiografia controle após 4 meses da cirurgia, persistia o aumento do espaço proximal entre o primeiro e o segundo metatarsais. Na ressonância magnética controle (Figura 3) após 6 meses da cirurgia, havia alteração de sinal plantar e lateral ao primeiro metatarsal no local da cicatriz cirúrgica, porém sem evidência clara de recidiva.

Um ano após a ressecção cirúrgica, o paciente manteve-se assintomático, porém no exame de ressonância magnética de controle (Figura 4), observou-se a recidiva do tumor com imagens de características semelhantes ao primeiro exame. A lesão tinha dimensões de 1,1 x 0,9 x 0,6cm. Além disso, as alterações no tecido que infiltravam o primeiro espaço intermetatarsal estavam mais evidentes e envolviam o ligamento de Lisfranc, com maiores componentes nas porções plantar e lateral.

Como o paciente permanecia assintomático, sem alterações de atividades diárias, sem restrição dos movimentos ou outras queixas, e sem massas palpáveis, optou-se por manter o acompanhamento clínico e realizar exames de imagens de controle para seguimento, que até o momento totaliza 19 meses.

DISCUSSÃO

O fibroma aponeurótico calcificante é um tumor benigno raro que acomete principalmente mãos e pés em crianças e adolescentes, já descrito em outros locais como mandíbula, pescoço, couro cabeludo, antebraço, coxa, joelhos, abdome e região lombossacra^(7,10). Foi primeiramente descrito por Keasby, em 1953, como fibroma aponeurótico juvenil, sendo também chamado de fibromatose juvenil^(1,7,10). Os pacientes apresentam pequenas massas de tecidos moles, mal delimitadas, endurecidas e de crescimento lento^(5,10). A apresentação epidemiológica do nosso caso é bem típica: homem de 17 anos com tumoração plantar presente desde os 10 anos e com crescimento lentamente progressivo.

Nas radiografias, podemos encontrar calcificações, múltiplas ou salpicadas, e erosões nos ossos⁽⁴⁾, apesar da erosão cortical ser raramente visualizada⁽⁹⁾. Na avaliação radiográfica inicial deste caso, havia calcificações finas plantares ao primeiro espaço intermetatarsal até a articulação de Lisfranc, e alargamento entre o primeiro e o segundo metatarsais. No entanto, a radiografia não é o suficiente para o diagnóstico definitivo. Os exames preferenciais para diagnosticar e delimitar a lesão são a ressonância magnética e a tomografia computadorizada. A tomografia pode revelar massa de tecido mole não específica, com calcificação pontilhada, e pode mostrar o padrão de crescimento infiltrativo da lesão para os tecidos circundantes⁽¹⁰⁾. Na ressonância, os achados incluem massa mal definida de tecido mole

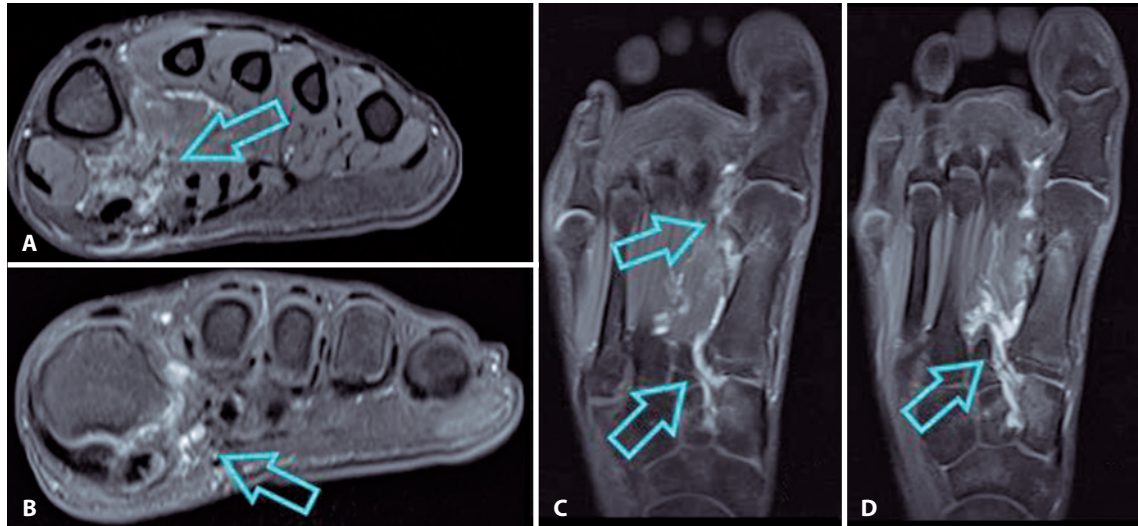


Figura 3. Imagens de RNM com supressão de gordura 6 meses após a cirurgia, com cortes axiais em T2 (A e B) e cortes coronais (C e D) mostram alteração de sinal no local da cicatriz cirúrgica (setas), porém sem evidência clara de recidiva

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

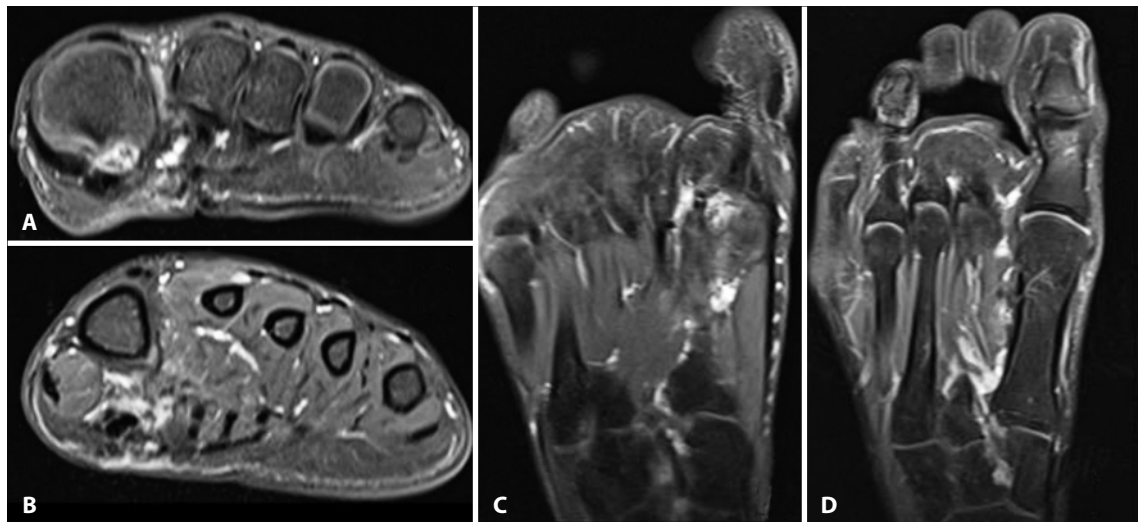


Figura 4. Imagens de RNM com supressão de gordura um ano após a cirurgia, com cortes axiais em T2 (A e B) e cortes coronais (C e D) mostram alteração de sinal plantar e lateral ao primeiro metatarsal, com realce periférico à lesão tumoral evidente, caracterizando recidiva do fibroma aponeurótico calcificante.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

com calcificações salpicadas, com sinal de intensidade baixa ou intermediária em T1, e imagem de intermediária a alta intensidade em T2. Em T2, notam-se também áreas de heterogeneidades, com poucas áreas de intensidade baixa ou intermediária^(3,4), sendo influenciadas pelo grau de calcificação, celularidade reduzida e quantidade de componentes fibrosos⁽⁴⁾. Como mostramos, a imagem heterogênea apresenta sinal aumentado após a injeção de contraste gadolínio⁽³⁾, podendo ser difusa ou com realce periférico⁽⁹⁾.

No presente caso, foi realizada a excisão cirúrgica da tumoração, por não haver indícios de malignidade nas imagens e pela história de crescimento lento e progressivo. A lesão estendia-se para o ventre medial do flexor curto do hálux, com múltiplos focos de calcificações no seu interior. Embora seja localizado na camada subcutânea em cerca de 80% dos casos, o FAC pode apresentar acometimento inter ou intramuscular⁽⁴⁾. Os limites exatos não eram evidentes durante a nossa excisão cirúrgica e, como a tumoração en-

volvía o sesamoide lateral, foi tomada a decisão de ressecá-lo em bloco com as partes moles acometidas. No entanto, durante o ato operatório, não foi identificado se a lesão se estendia proximalmente até a primeira articulação tarso-metatarsica ou se havia proximalmente foco isolado distinto de lesão. Não foi realizada uma biópsia por congelação das margens no ato cirúrgico pela benignidade da lesão.

O diagnóstico definitivo tem base nos achados histológicos, testes imuno-histoquímicos e estudos ultraestruturais. Na análise histopatológica, o FAC tem morfolofogia bifásica com celularidade moderada e infiltrativa, componente semelhante à fibromatose e com nódulos de calcificação acompanhados de células epitelioides arredondadas, com figuras mitóticas infrequentes. O presente caso apresentou achados semelhantes, com proliferação fusocelular moderadamente celular, infiltrativa e com formação de nódulos de matriz condroide e metaplasia cartilaginosa e óssea.

A natureza infiltrativa no fibroma aponeurótico calcificante manifesta-se por altas taxas de recorrência, maior

que 50%, o que pode perdurar por anos após a excisão inicial^(1,2,5). O risco de recorrência local parece ser maior em crianças mais novas e, em geral, a recidiva não é destrutiva^(1,5).

Neste relato de caso, foi observada a presença do tumor cerca de um ano após a cirurgia em paciente na fase final da adolescência. Não foi possível concluir se havia tumor remanescente por ressecção cirúrgica incompleta ou se houve uma recidiva mais precoce do FAC em relação ao descrito na literatura.

CONCLUSÃO

Em conclusão, o FAC é uma lesão rara que pode acometer os pés, devendo ser considerado como diagnóstico diferencial dos tumores plantares. O tratamento é pela ressecção cirúrgica, sendo o diagnóstico definitivo comprovado pela análise histopatológica e apresenta altas taxas de recorrência. O presente caso ressalta a importância do planejamento adequado com base em imagens para diminuir riscos e postergar as recidivas.

Contribuição dos autores: Cada autor contribuiu individual e significativamente para o desenvolvimento deste artigo: LBO *(<https://orcid.org/0000-0002-8606-6187>) concebeu e planejou as atividades que levaram ao estudo, redação do artigo, interpretou resultados do estudo, participou do processo de revisão, aprovou a versão final; DM *(<https://orcid.org/0000-0002-3893-0292>) participou do processo de revisão, aprovou a versão final; KVG *(<https://orcid.org/0000-0001-5025-0823>) interpretou resultados do estudo, participou do processo de revisão, aprovou a versão final; MCMD *(<https://orcid.org/0000-0001-6572-1771>) concebeu e planejou as atividades que levaram ao estudo, redação do artigo, interpretou resultados do estudo, participou do processo de revisão, aprovou a versão final. *ORCID (Open Researcher and Contributor ID).

REFERÊNCIAS

1. Keasbey LE. Juvenile aponeurotic fibroma (calcifying fibroma); a distinctive tumor arising in the palms and soles of young children. *Cancer*. 1953;6(2):338-46.
2. Corominas L, Sanpera I, Sanpera-Iglesias J, Ramos-Ansesio RF. Calcifying aponeurotic fibroma in children: Our experience and a literature review. *J Pediatr Orthop Part B*. 2017;26(6):560-4.
3. Nishio J, Inamitsu H, Iwasaki H, Hayashi H, Naito M. Calcifying aponeurotic fibroma of the finger in an elderly patient: CT and MRI findings with pathologic correlation. *Exp Ther Med*. 2014;8(3):841-3.
4. Shim SW, Kang BS, Lee CC, Suh JH, Shim HS. MRI features of calcifying aponeurotic fibroma in the upper arm: a case report and review of the literature. *Skeletal Radiol*. 2016;45(8):1139-43.
5. Fletcher CDM, Bridge JA, Hogendoorn P, Mertens F, editors. IARC WHO classification of tumours of soft tissue and bone. 4th ed. Geneva: WHO Press; 2013.
6. Khullar G, De D, Tripathy S, Prakash M, Saikia U, Handa S. Painful calcifying aponeurotic fibroma. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2016;82(4):449-52.
7. Sheikh RN, Karlic K. Calcifying aponeurotic fibroma of the hallux. *J Am Podiatr Med Assoc*. 2018;108(1):68-73.
8. Cho YH, Ahn K-S, Kang CH, Kim CH. Calcifying aponeurotic fibroma of the dorsum of the foot in a four-year-old boy: a case report with radiographic and magnetic resonance findings. *Iran J Radiol*. 2015;12(2):10-2.
9. Kim OH, Kim YM. Calcifying aponeurotic fibroma: Case report with radiographic and MR features. *Korean J Radiol*. 2014;15(1):134-9.
10. Schonauer F, Avvedimento S, Molea G. Calcifying aponeurotic fibroma of the distal phalanx. *Br J Plast Surg*. 2013;66(2):e47-9.