

Młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący – opis przypadku

Juvenile psammomatoid ossifying fibroma – case report

Wkład autorów:

A – projekt badań

B – wykonanie badań

C – analiza statystyczna

D – interpretacja danych

E – przygotowanie manuskryptu

F – przegląd piśmiennictwa

Magdalena Kuźmińska^{ADEF}, Tomasz Gotlib^E, Kazimierz Niemczyk^EKatedra i Klinika Otorynolaryngologii, Chirurgii Głowy i Szyi Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego;
Kierownik: prof. dr hab. n. med. Kazimierz Niemczyk

Article history: Received: 10.12.2020 Accepted: 21.01.2021 Published: 22.01.2021

STRESZCZENIE:

Wstęp: Młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący jest rzadko występującym nowotworem łagodnym głowy i szyi, rozwijającym się najczęściej u dzieci i młodych dorosłych w obrębie jamy nosowej, w zatokach przynosowych bądź oczodołach. Może przybierać charakter miejscowo złośliwy z tendencją do niszczenia struktur sąsiednich. Leczeniem z wyboru jest operacyjne usunięcie zmiany. W zależności od umiejscowienia guza i preferencji chirurga, zaleca się stosowanie dostępów endoskopowych lub dostępów zewnątrznych, wskazując na te pierwsze jako postępowanie z wyboru. Mając na uwadze ryzyko masywnego krwawienia śródoperacyjnego, przed zabiegiem konieczne jest zabezpieczenie preparatów krwiopochodnych.

Opis przypadku: W pracy przedstawiono przypadek 41-letniego pacjenta leczonego w Klinice Otorynolaryngologii, Chirurgii Głowy i Szyi WUM.

SŁOWA KLUCZOWE:

chirurgia endoskopowa zatok przynosowych, guzy jamy nosowej, guzy zatok przynosowych, młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący, włókniak kostniejący

ABSTRACT:

Introduction: Juvenile psammomatoid ossifying fibroma is a rare benign head and neck neoplasm that develops most commonly in children and young adults in the nasal cavity, paranasal sinuses or the orbit. It can have a locally malignant character with a tendency to destroy surrounding structures. The treatment of choice is surgical removal of the lesion. Depending on the location of the tumor and surgeon's preferences, it is recommended to use endoscopic or external approach, indicating the first one as the procedure of choice. Considering the risk of massive intraoperative bleeding, it is necessary to protect blood products before surgery.

Case report: We present the case of a 41-year-old patient treated in the Department of Otorhinolaryngology, Head and Neck Surgery of the Medical University of Warsaw.

KEYWORDS:

endoscopic sinus surgery, juvenile ossifying psammomatoid fibroma, nasal cavity neoplasms, ossifying fibroma, paranasal sinuses neoplasms

WYKAZ SKRÓTÓW

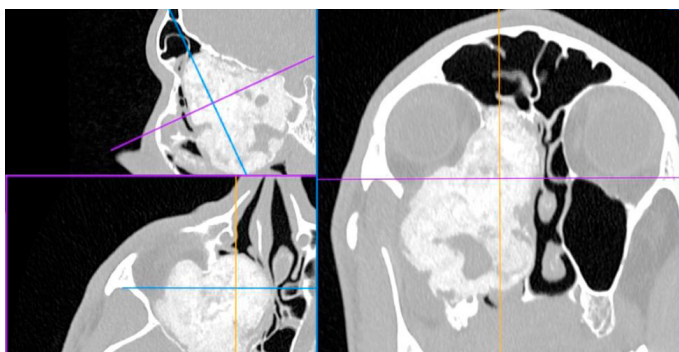
DSA – cyfrowa angiografia subtrakcyjna**KKCh** – koncentrat krwinek czerwonych**WHO** – Światowa Organizacja Zdrowia

WSTĘP

Młodzieńczy włókniak kostniejący (ang. *juvenile ossifying fibroma*) – rzadko występująca zmiana o łagodnym charakterze – to jeden z wielu guzów kostno-włóknistych rejonu głowy i szyi. Jak wskazuje nazwa, rozpoznawany jest on zazwyczaj w wieku pokwitania, w 79% u chorych poniżej 15. roku życia, jednakże może rozwijać się także u osób dorosłych [1, 2]. Zgodnie z klasyfikacją Światowej

Organizacji Zdrowia (ang. *World Health Organization*; WHO) guzów zębopochodnych z 2017 r., młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący zaszerogowany został jako wariant włókniaka kostniejącego twarzoczaszki z wyróżniającymi go cechami dotyczącymi: wieku występowania, lokalizacji oraz charakterystyki klinicznej i anatomopatologicznej [3]. W materiale autorstwa Narożnego z 1999 r. rozpoznanie włókniaka kostniejącego postawiono u 3 z 163 chorych z łagodnymi nowotworami nosa i zatok przynosowych (1,8%) [4].

Młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący rozpoznawany jest zazwyczaj u dzieci i młodych dorosłych. Charakterystycznymi jego lokalizacjami są: jama nosowa, zatoki przynosowe, oczodoł czy kompleks czołowo-sitowy; niezwykle rzadko obejmuje podstawę lub sklepienie czaszki [5].



Ryc. 1. Przedoperacyjne obrazy tomografii komputerowej przedstawiające guz o charakterze włókniaka kostniejącego.

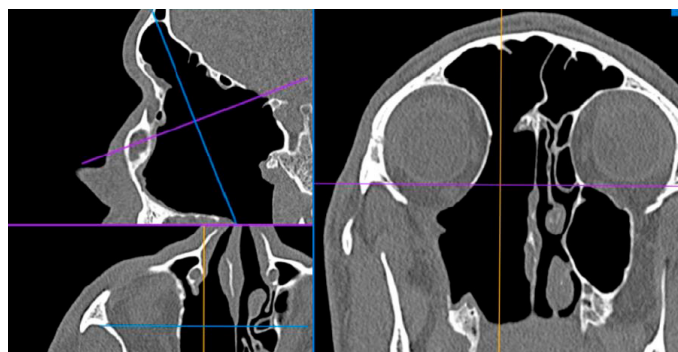
Obraz zmiany w badaniach obrazowych może prowadzić do postawienia właściwego rozpoznania, jednak jest to niełatwe ze względu na podobieństwa, jakie wykazuje z innymi zmianami kostno-włóknistymi twarzoczaszki. Histopatologicznie młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący charakteryzuje się: komórkowym zrębem włóknistym z drobnymi, jednorodnymi, kulistymi, zwapniałymi wtrętami przypominającymi ciała piaszczakowate (ang. *psammoma bodies*) [5, 6]. Mimo że jest on zmianą łagodną i wolno rosnącą, wykazuje charakter miejscowo złośliwy z tendencją do naciekania okolicznych struktur, stąd też istotne jest postawienie właściwej diagnozy i wdrożenie leczenia, którym powinno być całkowite usunięcie guza. Nieradykalna lub częściowa resekcja wiąże się z wysokim odsetkiem odrostu guza.

Niniejsza praca przedstawia przypadek młodzieńczego piaszczakowatego włókniaka kostniejącego rozpoznanego u osoby dorosłej.

OPIS PRZYPADKU

41-letni chory został skierowany do Kliniki Otorynolaryngologii, Chirurgii Głowy i Szyi WUM z innego ośrodka z rozpoznaniem naczyniakowłókniaka młodzieńczego oraz prośbą o wykonanie embolizacji i dalsze leczenie. Jednakże, w wykonanym w macierzystym szpitalu badaniu histopatologicznym wycinka pobranego z guza zatoki szczękowej rozpoznano zmianę o typie *psammomatoid juvenile ossifying fibroma*.

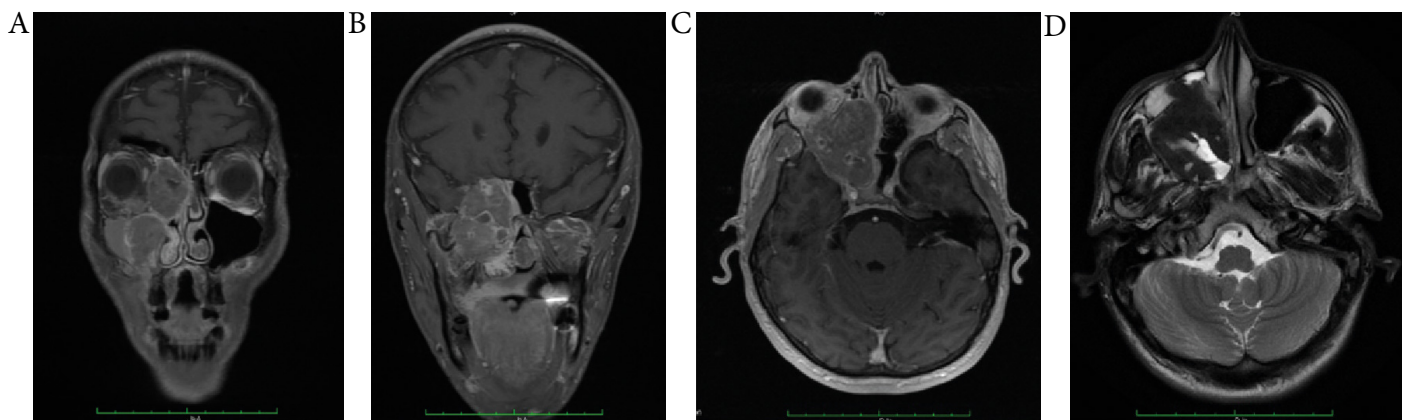
Poza utrzymującym się od około 2 lat upośledzeniem drożności nosa po stronie prawej, pacjent zgłaszał także uczucie rozpięcia w okolicy podoczodołowej prawej oraz obecny od kilku lat wytrzeszcz oka prawego i asymetrię twarzy. Dolegliwości uległy nasileniu kilka miesięcy przed hospitalizacją. Pacjent negował krwawienia z nosa i dwojenie obrazu. Podawał obecne od dzieciństwa niedowidzenie oka prawego. Badanie rynoskopowe wykazało obecność wypełniających prawą jamę nosa mas tkankowych. Nie stwierdzono nieprawidłowości po stronie przeciwnej. Poza wytrzeszczem oka prawego nie zaobserwowano odchyłań w zakresie pozostałych elementów badania otolaryngologicznego. Badanie okulistyczne wykazało: krótkowzroczność i astygmatyzm OP z pseudowytrzeszczem OP, zachowaną ruchomość gałek ocznych, rozrzedzenie siatkówki OP. W zakresie pozostałych elementów badania okulistycznego istotnych odchyłań nie stwierdzono. W badaniach laboratoryjnych nie stwierdzono istotnych odchyłań.



Ryc. 2. Obrazy TK zatok przynosowych w rekonstrukcji 3MPR po leczeniu operacyjnym.

W wykonanych przed hospitalizacją badaniach obrazowych (tomografii komputerowej i badaniu rezonansu magnetycznego) uwidoczniono dużą, niejednorodną, patologiczną masę tkankową wypełniającą zatokę szczękową prawą i prawą jamę nosa, penetrującą do dołu skrzydłowo-podniebiennego, dołu podskroniowego, wpuklającą się do oczodołu prawego i powodującą destrukcję jego dolnej i przyśrodkowej ściany, zajmującą sitowie przednie aż do zachyłka czołowego i zatokę klinową prawą z odcinkową destrukcją obramowania kostnego tętnicy szyjnej wewnętrznej oraz podstawy przedniego i środkowego dołu czaszki (Ryc. 1.).

Ze względu na przewidywane ryzyko krwawienia śródoperacyjnego, przedoperacyjnie zabezpieczono preparaty krwiiopochodne. Operację usunięcia guza przeprowadzono z dostępu wewnątrznosowego, pod kontrolą optyki endoskopowej 30°. W prawej jamie nosa uwidoczniono guz o twardej, przypominającej kość konsystencji, pokryty niezmienną błoną śluzową. Guz, silnie krwawiący, ustępował pod naciskiem łyżeczki. Usunięto część guza z sitowia przedniego, otwarto zatokę czołową, usunięto guz z górnej części nosogardła oraz zatoki szczękowej. Odsłonięto zmienioną przez guz blaszkę papierowatą. Ze względu na masywne krwawienie z całej powierzchni guza (utrata 2,4 L krwi w krótkim czasie) i ryzyko uszkodzenia tętnicy szyjnej wewnętrznej oraz nerwu wzrokowego w warunkach złej widoczności, zabieg zakończono. Możliwość koagulacji w trakcie zabiegu była znacznie ograniczona ze względu na naczynia penetrujące głęboko do tkanki guza. Założono obustronną tamponadę przednią. W okresie pooperacyjnym nie obserwowano krwawienia ani zaburzeń ruchomości gałki ocznej. Przetoczono koncentrat krwinek czerwonych (KKCz), kontynuowano antybiotykoterapię dożylną i przygotowano pacjenta do usunięcia tamponady w warunkach bloku operacyjnego. Po usunięciu tamponady stwierdzono masywne krwawienie z okolicy mogącej odpowiadać tętnicy Widiusza. Wobec nieefektywności koagulacji oraz szybkiej utraty krwi ponownie założono tamponadę przednią obustronnie i zaplanowano embolizację naczyń zasilających guz. W badaniu cyfrowej angiografii subtrakcyjnej (DSA) wykazano resztkowy guz zasilany od dwóch szerokich tętnic klinowo-podniebiennych oraz tętnicy sitowej przedniej lewej. Dodatkowe unaczynienie guza pochodziło od tętnicy sitowej przedniej prawej oraz tętnicy oponowej dodatkowej prawej. Wykonano embolizację tętnic klinowo-podniebiennych. W kolejnym dniu przeprowadzono operację usunięcia guza. W trakcie zabiegu nie obserwowano nasilonego krwawienia. Usunięto część guza przylegającą do przedniej ściany zatoki szczękowej, guz oddzielono od okostnej oczodołu, resekowano fragment z dołu podskroniowego, następnie odwarstwiono guz od tylnej części przegrody nosa i otwarto



Ryc. 3. (A–D) Przedoperacyjne badanie metodą rezonansu magnetycznego. (A–C) Skany w sekwencji T1 z kontrastem; (D) skany w sekwencji T2.

wypełnioną śluzem zatokę klinową. Usunięto część guza pokrywającą nerw wzrokowy, a następnie część guza przylegającą do małżowiny środkowej; poszerzono i oczyszczono z pozostałości guza ujście zatoki czołowej. Jamę po usunięciu guza wypełniono Surgicelom i Spongostanem, założono tamponadę przednią. Okres pooperacyjny przebiegł bez powikłań. Po 6 miesiącach od operacji w znieczuleniu ogólnym usunięto resztkowe fragmenty guza z przedniej ściany zatoki szczękowej. Pacjent pozostaje w obserwacji od 36 miesięcy, dotychczas bez wznowy (Ryc. 2).

OMÓWIENIE

Nazwa „młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący” stanowi rezultat wieloletniej kontrowersji wokół nomenklatury. Guz tego typu po raz pierwszy opisany został przez Benjaminsa w 1938 r., który używał terminu „włókniak kostnawy z kostnieniem atypowym”. W 1949 Gögl nazwał ten nowotwór „piaszczakowatym włókniakiem kostniejącym”, zaś kilka lat później Johansson wprowadził termin „młodzieńczego aktywnego włókniaka kostniejącego”. Ostatnie z wymienionych określeń miało podkreślać agresywny, proliferacyjny charakter patologii. Liczne modyfikacje nazwy miały miejsce aż do 2005 r., kiedy w klasyfikacji WHO guzów odzębowych i masywu szczękowo-sitowego wśród łagodnych zmian kostno-włóknistych głowy i szyi wyszczególniono m.in.: dysplazję włóknistą, dysplazję kostną i włókniaka kostniejącego [ICD-0 9262/0]. Włókniaki kostniejące można podzielić na formy klasyczne i młodzieńcze, zaś wśród tych ostatnich wyróżniamy dwie odrębne histopatologicznie postaci: beleczkowatą (*juvenile trabecular ossifying fibroma*) oraz piaszczakowatą (*juvenile psammomatoid ossifying fibroma*) [3]. Należy podkreślić, że charakterystyczne cechy histologiczne i kliniczne guza czynią młodzieńczego piaszczakowatego włókniaka kostniejącego patologią całkowicie odrębną od naczyńiakowłóknika młodzieńczego, jednak niejednorodna nomenklatura i rzadkie stosowanie polskiego nazewnictwa mogły być w opisywanym przypadku powodem umieszczenia błędnego rozpoznania w skierowaniu do szpitala.

Zmiany kostno-włókniste rejonu twarzoczaszki stanowią grupę patologii charakteryzujących się zastępowaniem tkanki kostnej niezłożliwą macierzą łącznotkankową zawierającą różną ilość substancji zmineralizowanej. Według Johnsona, młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący może mieć źródło w okolicy szwów

czaszkowych. Inni podkreślają rolę nadprodukcji śluzowo-włóknistego zrębu komórkowego. Nieprawidłowe komórki zrębu wytwarzają materiał szklisty, mogący ulegać kostnieniu [5]. W ostatnich latach w patogenezie włókniaka kostniejącego postuluje się także rolę mutacji genu HRPT2 [7]. W literaturze opisywane są zarówno pojedyncze przypadki, jak i serie młodzieńczych piaszczakowatych włókniaków kostniejących. W najliczniejszych z nich, przedstawionych przez Johnsona i wsp. oraz Makeka, obejmujących odpowiednio 112 i 86 pacjentów, opisano dwa typowe przedziały wiekowe występowania guza: 10.–15. oraz 25.–30. rok życia, choć liczne przypadki, podobnie jak opisywany w tej pracy, dotyczyły osób starszych. Obserwowano niewielką przewagę płci męskiej. Najczęstszymi lokalizacjami guza były: zatoki przynosowe (70%) i szczęka (20%) oraz żuchwa, jedynie w nielicznych przypadkach – kości mózgowczaszki [8, 9].

Młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący rozwija się zazwyczaj asymptotycznie, bez powodowania deficytów neurologicznych. Zależy to jednak od jego umiejscowienia. W przypadku lokalizacji w obrębie twarzoczaszki najczęstszym objawem jest wytrzeszcz [8]. Opisywano również przemieszczenie boczne gałki ocznej oraz upośledzenie ostrości wzroku. W przypadku zajęcia zatok przynosowych objawami są: blokada nosa, nawracające zapalenia zatok przynosowych, ból i obrzęk twarzy. Niebolesny obrzęk żuchwy może być wykładnikiem zajęcia tego obszaru. Guz charakteryzuje się powolnym wzrostem, może jednak zajmować sąsiadujące obszary poprzez przemieszczanie tkanek aż do naciekania i niszczenia tkanki kostnej. Rozrost wewnątrzczaszkowy może być przyczyną opisywanych powikłań pod postacią zapalenia mózgu lub opon mózgowo-rdzeniowych [9]. Możliwy jest także, szczególnie u pacjentów w 1. lub 2. dekadzie życia, agresywny wzrost guza. Jest on charakterystyczny zwłaszcza dla lokalizacji żuchwowej i związany z powstawaniem torbieli tętniakowatych (*aneurysmal bone cysts*). Pomimo ryzyka agresywnego wzrostu czy wznowy, dotychczas nie opisano przypadku przemiany złośliwej czy dającej przerzuty [5, 9]. Sugerowane w przypadku młodzieńczego piaszczakowatego włókniaka kostniejącego badania obrazowe obejmują tomografię komputerową w oknie kostnym oraz obrazowanie metodą rezonansu magnetycznego. W oknie kostnym tomografii komputerowej można uwidoczniać ekspansywną, ale dobrze ograniczoną zmianę, na marginesach zbudowaną z grubej tkanki kostnej, wewnątrz często wielotorbielowatą oraz zawierającą obszary typu „mlecznej szyby”. Nieprawidłowa tkanka kostna guza jest nietrudna do odróżnienia od otaczających kości. Badanie rezonansu magnetycznego w sekwencji

T1-zależnej ukazuje sygnał podobny do istoty szarej (Ryc. 3A.–C.) oraz obniżoną intensywność sygnału w obrazach T2-zależnych (Ryc. 3D.). W obrębie żuchwy uwidoczniać można ograniczoną lub rozległą zmianę z wapniejącymi macierzami, w rejonie zatok przynosowych zaś – wnikać do upowietrzonych przestrzeni masę o dobrze zdefiniowanych marginesach, choć zdarzają się przypadki zatarcia granic [5].

Młodzięczy piaszczakowaty włókniak kostniejący należy do grupy łagodnych zmian kostno-włóknistych o wspólnych cechach histopatologicznych, obejmujących występowanie bogatokomórkowego fibroblastowego zrębu z licznymi zwapnieniami i ogniskami kostnienia. Charakterystyczne jest występowanie mnogich, kulistych, jednorodnych wtrętów z koncentrycznymi zwapnieniami, przypominających ciała piaszczakowate. Niezwykle rzadko występują figury mitotyczne, nie obserwuje się atypii czy ognisk martwicy [10].

W różnicowaniu powinno się uwzględnić dysplazję włóknistą, będącą zmianą kostno-włóknistą charakteryzującą się odmienną do młodzieńczego włókniaka kostniejącego progresją, w przeciwieństwie do niego uwidaczniającą się jako jedno- lub wielomiejscowa, słabo ograniczona zmiana rozrostowa; aktywna postać dysplazji włóknistej może być jednak radiologicznie nieodróżnialna, a postawienie właściwego rozpoznania możliwe jest jedynie przy współpracy klinicysty, radiologa i patologa [11, 12]. Innymi zmianami, z którymi powinien być różnicowany młodzieńczy piaszczakowaty włókniak kostniejący, są nowotwory tworzące cement lub tkankę cementopodobną: kostniwiak łagodny (*cementoblastoma*) i włókniak kostniejący (*cementifying fibroma*), występujące zazwyczaj w 3. i 4. dekadzie życia i rozwijające się w okolicy przedtrzonowych i trzonowych zębów żuchwy, oponiak piaszczakowaty oraz – w przypadku dzieci – pierwotny wewnątrzkościowy naczyniak jamisty lub ziarniniak eozynofilowy [5]. Mimo klinicznych i radiologicznych cech przemawiających za rozpoznaniem młodzieńczego włókniaka kostniejącego, jeśli zmiana jest dostępna endoskopowo, wskazane jest pobranie wycinka do badania histopatologicznego, aby wykluczyć złośliwy charakter guza. Niektóre nowotwory złośliwe, takie jak mięsaki, mogą wykazywać cechy sklerotyzacji, erozji i destrukcji kostnej, jak również zwapniałe lub kostne wtręty, co może komplikować diagnostykę różnicową [13].

Leczeniem z wyboru jest całkowite chirurgiczne usunięcie zmiany. Stanowi to wyzwanie dla chirurga, ponieważ młodzieńcze piaszczakowate włókniaki kostniejące charakteryzują się silnym unaczynieniem, a także przyleganiem do opony twardej czy okostnej oczodołu [13]. Aby uniknąć nawrotów, należy znosić wiertłem diamentowym zewnętrzną warstwę guza aż do osiągnięcia poziomu gładkiej, zdrowej kości o mniej kruchej konsystencji [14]. Odrost guza po częściowej lub niekompletnej resekcji występuje często (30–56%) [3, 6, 15], zaś czas, w jakim można go zaobserwować, waha się od 6 miesięcy do nawet 19 lat po operacji [6]. Podwyższone ryzyko odrostu wykazują guzy powodujące znaczną destrukcję kostną i uniesienie okostnej, a także zlokalizowane w obszarach utrudnionego dostępu chirurgicznego, co uniemożliwia doszczętną resekcję. W zależności od umiejscowienia zmiany i preferencji chirurga, zalecane jest stosowanie dostępu zewnętrznego lub endoskopowych samodzielnie bądź w kombinacji z dostępem otwartym [16]. W ostatnich latach jako postępowanie z wyboru postuluje się

wykonywanie operacji endoskopowych, wykorzystanie dostępu zewnętrznego pozostawiając dla przypadków zajęcia przedniej ścianki zatoki czołowej czy zachyłki nadoczodołowej, zmian otaczających nerw wzrokowy czy obejmujących podstawę czaszki bocznie do nerwu wzrokowego [13].

Opisywane powikłania operacji obejmują znaczną śródoperacyjną utratę krwi wymagającą transfuzji oraz komplikacje wtórne do zniszczenia istotnych życiowo struktur [17]. Mimo to, nie postuluje się wykonywania przedoperacyjnej embolizacji. Niektórzy autorzy zalecają wręcz jej unikanie nawet w przypadku zmian silnie unaczynionych, zwłaszcza znajdujących się w bliskim sąsiedztwie oczodołu, z powodu ryzyka ślepoty spowodowanego licznymi połączeniami naczyń zaopatrujących guz i odgałęzieniami tętnicy ocznej [13]. W opisywanym przypadku wykonanie embolizacji było niezbędne z powodu masywnego krwawienia. W pracy Wanga przedstawiającej serię 31 operowanych endoskopowo przypadków włókniaków kostniejących zatok przynosowych potwierdzono korelację pomiędzy nasileniem krwawienia a czasem trwania operacji. Istotne znaczenie odgrywało także pierwotne obfite unaczynienie guza, histopatologia zmiany, w tym nierzadko torbiele tętniakowate w jej obrębie, powodujące, że usuwany pod kontrolą endoskopu, „kawałek po kawałku” guz często wykazywał tendencję do masywnego krwawienia. Spośród technik mających na celu ograniczenie krwawienia śródoperacyjnego należy wymienić ucisk krwawiącego miejsca, na przykład poprzez założenie setonu gazowego, elektrokoagulację, przetoczenie czynników krzepnięcia. Aby zapobiec potrzebie przetoczenia krwi, przed operacją anestezjolog powinien podać dożylnie duże objętości kryształoidów, aby szybko zwiększyć objętość krwi, a w trakcie zabiegu prowadzić znieczulenie w kontrolowanej hipotensji. Mimo podejmowanych działań, zdarza się, że masywne krwawienie uniemożliwia przeprowadzenie operacji i jest przyczyną jej przerwania [14]. Niezależnie od zastosowanego dostępu chirurgicznego, po operacji należy prowadzić regularne kontrole kliniczne i radiologiczne, by móc wykryć i leczyć ewentualną wznowę. W przypadku pierwotnie nieradykalnej resekcji nie zaleca się leczenia adjuwantowego z powodu radiooporności młodzieńczego piaszczakowatego włókniaka młodzieńczego, choć opisywane są przypadki skuteczności takiego postępowania [18]. Łagodny charakter zmiany wyklucza zastosowanie chemioterapii [10]. Mimo braku szczegółowych wytycznych dotyczących częstotliwości wizyt kontrolnych i dalszego postępowania, w przypadku wznowy zawsze warto rozważyć przeprowadzenie ponownej operacji.

WNIOSKI

1. Młodzięczy piaszczakowaty włókniak kostniejący jest łagodną, związaną z kością zmianą, mogącą przybierać charakter miejscowo złośliwy z tendencją do niszczenia otaczających struktur;
2. Postępowanie lecznicze obejmuje doszczętną usunięcie zmiany z wykorzystaniem dostępu endoskopowego lub zewnętrznego;
3. Z powodu ryzyka obfitego krwawienia śródoperacyjnego, przed zabiegiem niezbędne jest zabezpieczenie preparatów krwiopochodnych;
4. Po operacji zaleca się regularne, długoletnie kontrole ambulatoryjne. W razie rozpoznania wznowy należy rozważyć ponowne leczenie chirurgiczne.

Piśmiennictwo

1. Aggarwal S., Garg A., Aggarwal A., Ahuja N., Rehman F.: Juvenile ossifying fibroma: Psammomatoid variant. *Contemp Clin Dent.*, 2012; 3(3): 330–333.
2. Bielecki I., Mniszek J., Zielińska-Pajak E., Pajak J., Kluczevska E., Zygan L. Cemento-ossifying fibroma – opis dwóch przypadków i przegląd literatury. *Otolaryngol Pol*, 2005; 59(1): 109–114.
3. El-Naggar A.K., Chan J.K.C., Grandis J.R., Takata T., Slootweg P.J.: *World Health Organization Classification of Tumours*. Lyon, France: 4th Edition 2017: 251–252.
4. Narożny W., Stankiewicz Cz., Oździński W., Skorek A., Kamiński M.: Włókniak kostniejący szczęki o nietypowym obrazie klinicznym. *Czas. Stoma*, 1999; 52(5): 326–330.
5. López C.B., Zabala A.B., Bareño E.U.: Cranial juvenile psammomatoid ossifying fibroma: case report. *J Neurosurg pediatr*, 2016; 17: 318–323.
6. Bertrand B., Eloy P., Cornelis J.P. et al.: Juvenile aggressive cemento-ossifying fibroma: case report and review of the literature. *Laryngoscope*, 1993; 103: 1385–1390.
7. Pimenta F.J., Gontijo Silveira L.F., Tavares G.C. et al.: HRPT2 gene alterations in ossifying fibroma of the jaws. *Oral Oncol.*, 2006; 42: 735–739.
8. Makek M.: *Clinical Pathology of Fibro-Osteo-Cemental Lesions of the Cranio-Facial Skeleton and Jaw Bones*. Basel, Switzerland: Karger 1983: 128–227.
9. Johnson L.C., Youse M., Vinh T.N. et al.: Juvenile active ossifying fibroma. Its nature, dynamics and origin. *Acta Otolaryngol Suppl*, 1991; 488: 1–40.
10. Sarode S.C., Sarode G.S., Waknis P., Patil A., Jashika M.: Juvenile psammomatoid ossifying fibroma: a review. *Oral Oncol*, 2011; 47: 1110–1116.
11. Harnsberger H.R., Hudgins P., Wiggins R., Davidson H.C.: 100 rozpoznań Głowa i szyja. *Medipage*, Warszawa 2007: 155–157.
12. Papadaki M.E., Troulis M.J., Kaban L.B.: Advances in diagnosis and management of fibro-osseous lesions. *Oral Maxillofac Surg Clin N Am*, 2005; 17(4): 415–434.
13. Ciniglio Appiani M., Verillaud B., Bresson D. et al.: Ossifying fibromas of the paranasal sinuses: diagnosis and management. *Acta Otorhinolaryngologica Italica: Organo Ufficiale Della Societa Italiana di Otorinolaringologia e Chirurgia Cervico-facciale*, 2015; 35(5): 355–361.
14. Wang H., Sun X., Liu Q., Wang J., Wang D.: Endoscopic resection of sinonasal ossifying fibroma: 31 cases report at an institution. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2014; 271: 2975–2982.
15. Figen A., Hasmet Y., Eren A.: Psammomatoid variant of juvenile ossifying fibroma. *Indian J Pathol Microbiol*, 2018; 61(3): 443–445.
16. Rowland N.C., Jermakowicz W.J., Tihan T., El-Sayed I.H., Mc-Dermott M.W.: Subacute cystic expansion of intracranial juvenile psammomatoid ossifying fibroma. *J Neurosurg Pediatr*, 2013; 11: 687–691.
17. Noffke C.E.: Juvenile ossifying fibroma of the mandible. An 8-year radiological follow-up. *Dentomaxillofac Radiol*, 1998; 27: 363–366.
18. Strickler S., Hitchcock K.E., Dziegielewski P.T., Mendenhall W.M.: Radiotherapy for juvenile ossifying fibroma of the maxillary sinus: Case report and literature review. *Head Neck*, 2017; 39(8): E81–E84.

Word count: 2115 Tables: – Figures: 3 References: 18

Access the article online: DOI: 10.5604/01.3001.0014.6993

Table of content: <https://otorhinolaryngologypl.com/issue/13697>

Some right reserved: Polish Society of Otorhinolaryngologists Head and Neck Surgeons. Published by Index Copernicus Sp. z o.o.

Competing interests: The authors declare that they have no competing interests



The content of the journal „Polish Society of Otorhinolaryngologists Head and Neck Surgeons” is circulated on the basis of the Open Access which means free and limitless access to scientific data.



This material is available under the Creative Commons – Attribution-NonCommercial 4.0 International (CC BY-NC 4.0). The full terms of this license are available on: <https://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/legalcode>

Corresponding author: dr n. med. Magdalena Kuźmińska; Katedra i Klinika Otorinolaryngologii, Chirurgii Głowy i Szyi Warszawskiego Uniwersytetu Medycznego; ul. Banacha 1a, 02-097 Warszawa, Polska; tel. +48 (22) 599 25 21; e-mail: magdalena.kuzminska@wum.edu.pl

Cite this article as: Kuzminska M., Gotlib T., Niemczyk K.: Juvenile psammomatoid ossifying fibroma – case report; *Pol Otorhino Rev* 2021; 10 (1): 57-61