

Superficial Orbital Rim Osteoma Presented as Palpable Nodules

Bagheri A, MD*; Feizi M, MD

Ocular Tissue Engineering Research Center, Shahid Beheshti University of Medical Sciences, Tehran, Iran

* Corresponding author: abbasbagheri@yahoo.com

Purpose: To report a case of superficial orbital rim osteoma.

Case Report: A 29-year-old woman presented with two small and firm subcutaneous nodule in anterior aspect of the left inferonasal orbital rim. Orbital CT scan showed small well circumscribed exophytic bone density masses on frontal process of maxillary bone. The patient did not undergo surgery at the time of the first referral. After 5 years, she was treated with clinical examination and CT scan according to the growth of the lesion. Complete surgical excision was performed through modified Linch incision. Histopathology evaluation was consistent with ivory type osteoma.

Conclusion: Although the orbital rim osteoma often originates from paranasal sinuses and appears as a mass in the orbit with or without superficial components, it may present as subcutaneous nodules on orbital rim.

Keywords: Orbital Osteoma, Sub Cutaneous Nodule, Superficial Osteoma

- Bina J Ophthalmol 2018; 24 (1): 69-73.

گزارش یک مورد استئومای سطحی اربیت به صورت دو ندول برجسته قابل لمس

دکتر عباس باقری^۱ و دکتر محدثه فیضی^۲

هدف: گزارش یک مورد استئومای سطحی اربیت به صورت دو ندول برجسته قابل لمس
معرفی بیمار: خانم ۲۹ ساله‌ای با شکایت از دو توده قابل لمس در ناحیه اینفرودمیال حاشیه اربیت چشم چپ مراجعه نمود. در لمس، دو توده سفت و ندول مانند کوچک و بدون تندرینس جلوی حاشیه تحتانی داخلی اربیت چپ لمس می‌شد. در CT اسکن، برجستگی استخوانی اگزوفیتیک کوچک با حدود مشخص روی زائده فرونتال استخوان فک بالایی (ماگزیلاری) وجود داشت. بیمار در زمان اولین مراجعه حاضر به جراحی نشد و بعد از پنج سال با توجه به رشد ضایعه از نظر نمای بالینی و CT اسکن، تحت جراحی قرار گرفت. با برش Modified Linch، دو توده ندول مانند خارج گردید که در بررسی میکروپاتولوژی، استئوما تشخیص داده شد.

نتیجه‌گیری: اگرچه استئومای اربیت اغلب از سینوس‌های پاراناژال منشا می‌گیرد و به صورت یک توده داخل اربیت با یا بدون اجزای سطحی بروز می‌کند اما می‌تواند به صورت توده اولیه و سطحی و زیرجلدی بدون اجزای عمقی نیز ظاهر یابد.

کلمات کلیدی: استئومای چشمی، استئومای سطحی و ندول زیرجلدی

- مجله چشم‌پزشکی بینا ۱۳۹۷؛ دوره ۲۴، شماره ۱: ۶۹-۷۳.

• پاسخ‌گو: دکتر عباس باقری (e-mail: abbasbagheri@yahoo.com)

۱- استاد- چشم‌پزشک- دانشگاه علوم پزشکی شهید بهشتی- تهران- ایران

۲- استادیار- چشم‌پزشک- دانشگاه علوم پزشکی شهید بهشتی- تهران- ایران

تهران- پاسداران- بوستان نهم- خیابان پایدارفرد (خیابان امیر ابراهیمی)- پلاک ۲۳- مرکز تحقیقات مهندسی بافت چشم

مقدمه

استئوما یک تومور استخوانی خوش‌خیم با رشد آهسته است که اغلب در قسمت میانی صورت بروز می‌کند و شایع‌ترین تومور خوش‌خیم سینوس‌ها را تشکیل می‌دهد. در مردها شایع‌تر بوده و اغلب در دهه ۵-۲ دیده می‌شود.^۱ استئومای اربیت اغلب از سینوس‌های پاراناژال منشا می‌گیرد و با گسترش ثانویه، اربیت را درگیر می‌کند و به ندرت به صورت اولیه از اربیت شروع می‌شود.^{۲،۳} میزان بروز گسترش تومور ثانویه به اربیت در مطالعات مختلف بین ۱ تا حتی ۲۴ درصد گزارش شده است.^{۴،۵} استئوماها اغلب کوچک و بی‌علامت هستند و ممکن است به طور اتفاقی در تصویربرداری سر و گردن کشف شوند. تنها ۵ درصد از آن‌ها علامت‌دار می‌شوند.^۴ درگیری اربیت اغلب به صورت یک توده عمقی با یا بدون اجزای سطحی است و می‌تواند تظاهرات مختلفی داشته باشد از جمله جابه‌جایی پیش‌رونده گلوب، درد، دوبینی، متامورفوزیسی، اپی‌فورا، توده قابل لمس، داکریوسیستیت، سلولیت اربیت و کاهش دید.^۶

استئوم‌های دکمه‌ای (Button osteoma) به صورت برجستگی‌های سطحی در استخوان‌های مجامه و صورت گزارش شده‌اند و اغلب مشکل زیبایی محسوب می‌شوند.^{۷-۹} استئوماهای آسمپتوماتیک با توجه به احتمال بسیار کم برای تبدیل شدن به بدخیمی، بهتر است پی‌گیری شوند. با توجه به این که استئوماهای سینوس اسفنویید حتی در صورت بی‌علامتی می‌توانند روی عصب بینایی اثر مخربی داشته باشند، باید خارج شوند. در موارد علامت‌دار، خارج کردن کامل توده ایده‌آل است اما گاهی برای جلوگیری از آسیب به عناصر مجاور، خارج کردن ساب‌توتال با توجه به رشد آهسته استئوما، مطلوب است. بعضی معتقدند که هسته مرکزی، منشا رشد استئوما است و باید حین جراحی خارج شود تا از رشد مجدد توده جلوگیری شود.^۱

در این مطالعه ما یک مورد استئومای سطحی اربیت را که به صورت دو ندول اولیه و سطحی قابل لمس بروز کرده و طی پنج سال، رشد قابل ملاحظه‌ای داشت را معرفی می‌کنیم که به خوبی با جراحی درمان گردید.

معرفی بیمار

خانم ۲۹ ساله‌ای با شکایت از توده‌های قابل لمس در ناحیه تحتانی داخلی حاشیه اربیت چشم چپ از سه سال قبل مراجعه نمود. در معاینه، دو توده سفت و ندول مانند کوچک جلوی حاشیه تحتانی داخلی اربیت قابل لمس بود. علائم التهاب و تندرنس وجود

نداشت و بیمار نیز از درد و پارستزی شاکی نبود. وی سابقه‌ای از علائم گوارشی و پولیپ متعدد روده در خود و خانواده ذکر نکرد و معاینات چشمی طبیعی بود.

در CT اسکن اربیت، دو برجستگی کوچک همگن (هموژن) و اگزوفیتیک با حدود مشخص و بدون پایه (sesille) روی زائده فرونتال استخوان ماگزیلاری وجود داشت. بیمار در زمان اولین مراجعه حاضر به جراحی نشد. بعد از گذشت پنج سال ضایعه در نمای بالینی و نیز در CT اسکن به طور قابل ملاحظه‌ای بزرگتر شد بنابراین بیمار تحت جراحی قرار گرفت (تصویر ۱).

با برش Modified Linch و blunt dissection دو توده ندول مانند و تقریباً هم اندازه با ابعاد ۱۰*۶*۵ میلی‌متر و با سطح صاف و به رنگ سفید صورتی خارج شد که چسبندگی به نسبت شدید به استخوان داشت. در بررسی میکروپاتولوژی، بافت استخوانی لاملار فشرده حاوی سلول‌های استخوانی بالغ به همراه بافت کم‌فیبر و عروقی مشاهده شد که منطبق بر هیستوپاتولوژی استئوما بود (تصویر ۲).

برای بیمار جهت بررسی سندرم گاردنر معاینه کامل شبکه با مردمک باز از نظر وجود هیپرپلازی اپی‌تلیوم رنگدانه‌ای شبکه و هم‌چنین مشاوره گوارشی و کولونوسکوپی جهت بررسی پولیپوزیس روده صورت گرفت که نتیجه تمام معاینات طبیعی بود. در CT اسکن سایر تظاهرات سندرم گاردنر شامل تعداد زیاد دندان و Odontoma وجود نداشت. پی‌گیری دو ساله بیمار نشانگر بهبود کامل زخم با حداقل اسکار پوستی بود و هیچ‌گونه عارضه و عود ضایعه مشاهده نگردید (تصویر ۳ نمایانگر دو هفته بعد از جراحی بیمار است).

بحث

این مقاله گزارشی است از بروز یک مورد استئومای اولیه اربیت به صورت دو ندول کوچک بیضی شکل و سطحی در لبه حاشیه تحتانی اربیت که فاقد اجزای عمقی‌تر بود. هم‌چنین با وجود متعدد بودن، در زمینه سندرم گاردنر نبود.

استئوما و فیبروس دیسپلازی، شایع‌ترین تومورهای استخوانی اربیت هستند. استئوما در واقع یک هامارتومای استخوانی است که اغلب از استخوان بالغ تشکیل شده و بیش‌تر موارد از سینوس‌های پاراناژال منشا می‌گیرد.^۲ استئوما از نظر فراوانی بین سینوس‌های پاراناژال به ترتیب در سینوس‌های فرونتال، اتموئید، ماگزیلاری و اسفنویید بروز می‌کند.^{۱۱،۱۲} استئومای اولیه اربیت درصد بسیار کمی از موارد را شامل می‌شود.



تصویر ۱- تصاویر سمت راست: نمای ظاهر بالینی ضایعه به صورت دو ندول برجسته در مراجعه اولیه (بالا) و بزرگ شدن آن بعد از پنج سال (پایین) را نشان می‌دهد. تصاویر سمت چپ: CT اسکن اگزپال از قسمت تحتانی اربیت تصویر ضایعه استخوانی کوچک در قسمت قدامی داخلی اربیت (بالا) و بزرگ شدن آن بعد از پنج سال (پایین) را نشان می‌دهد.

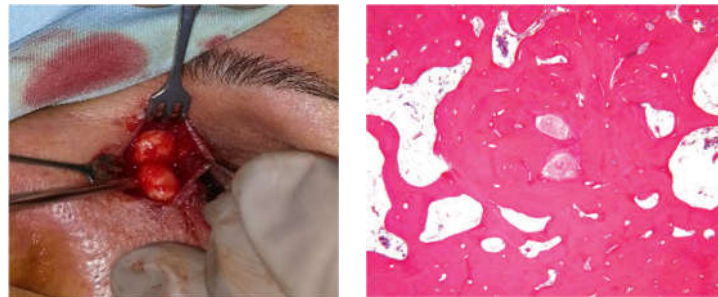
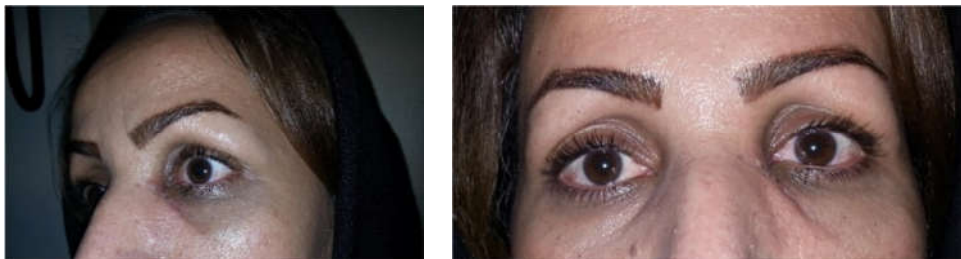


Fig: Osteoma lamellar compact bone H & E *100

تصویر ۲- سمت چپ: نمای ماکروسکوپی استئوما به صورت دو نوده کوچک با سطح صاف و رنگ سفید تا صورتی و قوام متراکم پس از آزاد سازی در محل جراحی دیده می‌شوند. سمت راست: تصویر پاتولوژی هماتوکسلین ائوزین با بزرگمایی ۱۰۰ نشان دهنده استخوان لاملار فشرده و معرف استئوما می‌باشد.



تصویر ۳- نمای چهره بیمار بعد از جراحی

نداشت. هم‌چنین اندازه بزرگترین قطر در توده استئوما بیمار مذکور، ۱ سانتی‌متر بود که از متوسط اندازه ۴۵ مورد سینواربیتال استئومای گزارش شده توسط McHugh (۳/۱ سانتی‌متر)^{۱۱} کوچک‌تر بود. به نظر می‌رسد در این بیمار، تومورها به دلیل سطحی بودن، زودتر کشف شدند. استئوماها از نظر مکان بروز می‌توانند مرکزی (اندوستال)، محیطی (پریوستال) و خارج اسکلتی (که به آن کوریستومای اسئوس نیز گفته می‌شود و معمولاً در عضلات بروز می‌کند)

استئوما با توجه به محل بروز در اربیت، علایم متفاوتی ایجاد می‌کند که شامل پروپتوز پیشرونده، محدودیت حرکت و دوبینی، درد صورت^{۱۳}، پارستزی در مسیر شاخه‌های عصب سه‌قلو و توده یا ندول قابل لمس^{۱۴} می‌باشد. gaze evoked amaurosis و سندرم براون اکتسابی^{۱۵}، آمفیزم اربیت^{۱۶} و رینوره CSF^{۱۷} نیز گزارش شده است. در اغلب گزارشات، توده قابل لمس شیوع زیادی ندارد^{۱۱}. در بیمار ما تنها علامت، لمس دو ندول زیرجلدی بود و به دلیل عدم تماس با عناصر عمقی‌تر، علامت دیگری وجود

مطرح شده‌اند که قطعی نمی‌باشند^{۲۰}. بیمار ما سابقه‌ای از ضربه و عفونت را نداشت، اما به دلیل بروز آن در نزدیکی یکی از درزهای استخوانی صورت (جایی که در دوران جنینی کانون استخوانی نازال و کانون استخوانی ماگزیلاری بهم می‌رسند) به نفع نظریه نقص تکاملی بود. اکثر موارد استئوماها، منفرد هستند ولی مواردی از همراهی با سندرم گاردنر نیز گزارش شده است که همواره در استئوماها باید همراهی با این سندرم کنار گذاشته شود. سندرم گاردنر یک آدنوماتوزیس کولون وراثتی اتوزومال غالب است که در آن بروز آدنوکارسینوم کولون ۱۰۰ درصد می‌باشد. سایر علائم سندرم گاردنر شامل بدخیمی‌های خارج کولون (مثل سرطان معده، هیپوتوبلاستوما) و هم‌چنین ضایعات خوش‌خیم خارج از کولون از جمله آنژیوفیبروم بینی، هیپرپلازی مادرزادی اپی‌تلیوم رنگدانه‌ای شبکیه (CHRPE) و آدنوم آدرنال می‌باشد^{۲۱،۲۲}. هیچ یک از علائم سندرم گاردنر در بیمار ما وجود نداشت.

در نمای ماکروسکوپی وقتی استئوما به طور کامل خارج شود نمای براق، سفید تا صورتی با سطح صاف و محدب دارد^۲ و بیمار ما هم به همین شکل بود. تعدد و دوطرفه بودن ضایعه در استئوم نادر است، که در بیمار ما یک‌طرفه و به صورت متعدد بروز کرده بود.

از نظر هیستوپاتولوژی، بخش اعظم استئوما از بافت استئوس تشکیل می‌شود ولی به صورت جزئی بافت نرم فیبروواسکولار نیز ممکن است در ساختار آن وجود داشته باشد^{۲۳}. استئوماها بر مبنای این که کدام نوع بافتی در استخوان غالب است به سه گروه تقسیم می‌شوند: متراکم (Ivory)، تراکولار (Cancellous) و فیبروس (Spongy)^۲. تقسیم‌بندی‌های پاتولوژی دیگری نیز در مقالات برای استئوما وجود دارد از جمله استئومای solid و متراکم (Ivory osteoma)، استئومای mature (استئومای بالغ) و استئومای mixed^{۱۱}. در بیمار ما هر دو ضایعه در پاتولوژی، دارای نمای استخوانی متراکم و Ivory type بودند. استئوماها ممکن است مناطق شبیه به استئوبلاستوما داشته باشند. بعضی معتقدند که این موارد، استئوماهای تهاجمی‌تری هستند و اگر در سینوس باشند، بیش‌تر به عناصر مجاور و از جمله اربیت تهاجم می‌کنند اما برخی دیگر آن را رد کرده‌اند^{۱۱}. در مطالعه McHugh استئوماهای منشا گرفته از سینوس ماگزیلا و استئوماهای اولیه اربیت، تظاهرات استئوبلاستیک وجود نداشت^{۱۱}. در بیمار ما شواهدی از تظاهرات استئوبلاستوما در پاتولوژی دیده نشد. در مطالعه McHugh بین تظاهرات رایوگرافی و پاتولوژی ارتباط نسبی گزارش شد^{۱۱}. در بیمار ما نیز استخوان متراکم در پاتولوژی

باشند^۷. بر اساس این تقسیم‌بندی، استئوما در بیمار ما از نوع محیطی بود چون در مجاورت استخوان قرار گرفته و چسبندگی زیادی به پریوست داشت. یک مورد استئومای خارج اسکلتی در پلک فوقانی بدون مجاورت و یا چسبندگی استخوانی توسط Singh گزارش شده است^{۱۸} اما در بیمار ما چسبندگی و مجاورت استخوانی وجود داشت.

در یک مطالعه گذشته‌نگر که توسط Mansoor و Afghani T^{۱۹} صورت گرفت، استئوماهای اربیت بر مبنای تظاهرات بالینی و رادیوپاتولوژی به هفت دسته تقسیم گردیدند که شامل: Sessile، wrapped، Dumb-bell، Pedunculated، (پوشیده شده با غضروف)، naked (برهنه و بدون پوشش غضروف)، همگن (هموزن) و ناهمگن (هتروزن) بودند. در این تقسیم‌بندی به بروز استئوما به صورت ندول سطحی اشاره‌ای نشد. بر مبنای تقسیم‌بندی ارایه شده از لحاظ نمای رادیولوژی، استئوم در بیمار ما به صورت بدون پایه (sesile) دیده شد اما حین جراحی چسبندگی تنها به استخوان مجاور وجود داشت و بافت استخوانی تومور از بافت استخوان مجاور جدا بود و توده‌ها بیضوی شکل بودند. تظاهر استئوما به صورت ندول قابل لمس سطحی در مطالعه Wei LA و همکاران^۶ در ۳ بیمار از ۱۱ بیمار گزارش شد اما ندول‌هایی که در هر سه بیمار لمس شدند قسمتی از توده بزرگ‌تر عمقی بودند و فقط یکی از آن‌ها به صورت اولیه از اربیت منشا گرفته بود. در بیمار ما، هر یک از ندول‌ها توده جداگانه‌ای بودند و ارتباطی با توده دیگر و سینوس‌های اطراف نداشتند.

استئومای سطحی در ناحیه پیشانی به صورت ندول زیرجلدی گزارش شده است که به آن استئومای دکمه‌ای (Button osteoma) می‌گویند و اغلب روی استخوان فرونتال ایجاد می‌شود^۹. استئومای سطحی در بیمار ما روی زائده فرونتال استخوان ماگزیلا قرار داشت. در مطالعه Eshed V^۸ و همکاران^۸ استئوماهای دکمه‌ای مورد بررسی قرار گرفتند. در این مطالعه استئومای دکمه‌ای اغلب منفرد بودند و به ترتیب بیشتر روی استخوان‌های آهیانه (پاریتال)، پیشانی (فرونتال) و فک فوقانی (ماگزیلاری) بروز کردند که اگر همانند بیمار ما به صورت دو یا تعداد بیش‌تری ضایعه گرد و کوچک در کنار هم قرار گرفته بودند، به عنوان ضایعه تودرتو یا آشیانه‌ای (nested) تقسیم‌بندی شدند. استئومای دکمه‌ای مجمله اغلب گنبدی شکل و یا به شکل قارچ گزارش شده‌اند اما در بیمار ما استئوماها نمای بیضوی داشتند.

علت ایجاد استئوما ناشناخته است، عواملی چون نقص تکاملی، ضربه، عفونت و التهاب مزمن به عنوان علل احتمالی ایجاد استئوما

جنبه قابل توجه است: منشا توده به طور اولیه از حاشیه اربیت بود و از سینوس‌های پارانازال منشا نگرفته بود، هم‌چنین استئوما به صورت دو توده کوچک کنار هم بروز کرده بودند در حالی که در گزارش‌های قبلی، اغلب استئوماهای اربیت منفرد بودند. این دو ندول کوچک و قابل لمس روی حاشیه اربیت بروز نموده و فاقد اجزای عمقی تر بودند.

نتیجه‌گیری

استئومای اربیت می‌تواند به صورت اولیه در حاشیه اربیت رشد کند و به صورت ندول اولیه قابل لمس زیرجلدی و بدون وجود اجزای عمقی بروز کند که جراحی سبب ریشه‌کنی آن می‌شود.

متناسب با نمای متراکم در CT اسکن بود. دو تشخیص افتراقی عمده در بیمار ما اگزوستوز و هیپرستئوز بودند که اولی برجستگی‌های استخوانی با ساختار طبیعی است حال آنکه تومور در بیمار ما هیپرسلولار بود و دومی یک واکنش به التهاب یا بدخیمی به صورت ضخیم‌شدگی استخوان است که با بیمار ما تطبیق نداشت.^۴

اگرچه استئوم‌های عمقی اربیت اغلب نیاز به مداخلات مشترک جراح اربیت با جراح اعصاب و متخصص گوش و حلق و بینی دارد ولی استئوم‌های سطحی مانند بیمار ما، به خوبی توسط جراح اربیت قابل برداشت است و اغلب با عوارض کمی همراه است.^۲

تظاهرات استئومای اربیت در بیماری که معرفی کردیم از چند

منابع

- Greenspan A. Benign bone-forming lesions: osteoma, osteoid osteoma, and osteoblastoma. *Skeletal radiology* 1993;22:485-500.
- Selva D, White VA, O'Connell JX, et al. Primary bone tumors of the orbit. *Survey of ophthalmology* 2004;49:328-342.
- Becelli R, Santamaria S, Saltarel A, et al. Endo-orbital osteoma: two case reports. *Journal of Craniofacial Surgery* 2002;13:493-496.
- Mansour AM, Salti H, Uwaydat S, et al. Ethmoid sinus osteoma presenting as epiphora and orbital cellulitis: case report and literature review. *Survey of ophthalmology* 1999;43:413-426.
- Pons Y, Blancal JP, Vérillaud B, et al. Ethmoid sinus osteoma: diagnosis and management. *Head & neck*. 2013;35:201-204.
- Wei LA, Ramey NA, Durairaj VD, et al. Orbital osteoma: clinical features and management options. *Ophthalmic Plastic & Reconstructive Surgery* 2014;30:168-174.
- Hanavas M, Chatra L, Shenai P, et al. Multiple peripheral osteomas of forehead: report of a rare case. *Annals of medical and health sciences research*. 2013;3:105-107.
- Eshed V, Latimer B, Greenwald CM, et al. Button osteoma: its etiology and pathophysiology. *American Journal of Physical Anthropology: The Official Publication of the American Association of Physical Anthropologists*. 2002;118:217-230.
- Sewell LD, Adams DC, Marks VJ. Subcutaneous Forehead Nodules: Attention to the button osteoma and frontalis-associated lipoma. *Dermatologic Surgery* 2008;34:791-798.
- Rootman J. Diseases of the orbit: a multidisciplinary approach: Lippincott Williams & Wilkins; 2003: 280-283.
- McHugh JB, Mukherji SK, Lucas DR. Sino-orbital osteoma: a clinicopathologic study of 45 surgically treated cases with emphasis on tumors with osteoblastoma-like features. *Archives of pathology & laboratory medicine* 2009;133:1587-1593.
- Sinha A, Jha D, Deka R. Osteoma of the paranasal sinuses. *Indian Journal of Otolaryngology and Head and Neck Surgery* 2003;55:166-169.
- Kayaci S KA, Gucer H, Seckin H. Primary osteoma of the orbit with atypical facial pain: case report and literature review. *Turkish neurosurgery* 2012;22:389-392.
- Friedrich RE. Long-term follow-up control of pedunculated orbital floor osteoma becoming symptomatic by atypical facial pain. *In Vivo* 2009;23:117-121.
- Biedner B, Monos T, Frilling F, et al. Acquired Brown's syndrome caused by frontal sinus osteoma. *Journal of Pediatric Ophthalmology and Strabismus* 1988;25:226-229.
- Zhuang A, Li Y, Lin M, et al. Ethmoid osteoma as a culprit of orbital emphysema: a case report. *Medicine* 2015;94.
- Cecire A, Harrison H, FRACS PN. Ethmoid osteoma, orbital cellulitis and orbital emphysema. *Australian and New Zealand Journal of Ophthalmology* 1988;16:11-14.
- Singh S. Extraskelatal Osteoma of the Eyelid-A Rare Case Report.
- Afghani T, Mansoor H. Types of orbital osteoma-A descriptive analysis. *Orbit* 2018;37:3-8.
- Miller NR, Gray J, Snip R. Giant, mushroom-shaped osteoma of the orbit originating from the maxillary sinus. *American Journal of Ophthalmology* 1977;83:587-591.
- Harned RK, Buck JL, Olmsted WW, et al. Extracolonic manifestations of the familial adenomatous polyposis syndromes. *AJR. American journal of roentgenology* 1991;156:481-485.
- Groen EJ, Roos A, Muntinghe FL, et al. Extra-intestinal manifestations of familial adenomatous polyposis. *Annals of Surgical Oncology* 2008;15:2439-2450.
- Garrity JA, Henderson JW, Cameron JD. Henderson's orbital tumors: Lippincott Williams & Wilkins; 2007.