



## DYSPLASIE OSSEUSE FLORIDE: DIFFICULTÉ DE PRISE EN CHARGE À PROPOS D'UN CAS CLINIQUE.

### FLORIDA BONE DYSPLASIA: DIFFICULTY OF MANAGEMENT OF A CLINICAL CASE

Amal Lachkar, Lamiaa Kissi, Ihsane Ben Yahya

Odontologie chirurgicale CCTD Chu Ibn Rochd Casablanca

#### RÉSUMÉ:

La dysplasie osseuse floride est une lésion fibro-osseuse bénigne et rare des maxillaires. Elle est rencontrée surtout chez les femmes de races noires de 40 à 50ans, Souvent de découverte fortuite, mais peut se compliquer par une dysmorphose faciale et une ostéite chronique.

Il s'agissait d'une dame âgée de 53 ans dont le motif de consultation était une tuméfaction siégeant au niveau mandibulaire gauche évoluant depuis une année.

L'examen clinique a révélé la présence des tuméfactions mandibulaire droite et gauche. L'examen radiologique a montré des images mixtes symétriques mal limitées. Le traitement a consisté en l'exérèse des lésions qui se sont révélés à l'examen anatomopathologique des dysplasies osseuses.

A travers ce cas clinique, une mise au point diagnostique et thérapeutique, seront discutées afin de prendre en charge correctement ce type de lésion.

#### MOTS CLÉS:

dysplasia osseuse floride, diagnostic, traitement.

#### INTRODUCTION:

La dysplasie osseuse floride, anciennement appelée dysplasie cémento-osseuse floride a été décrite pour la première fois par Melrose et al en 1976 [1].

C'est une lésion fibro-osseuse bénigne et rare des maxillaires. [2] Elle touche surtout les femmes de races noires de 40 à 50ans [3], mais peut toucher aussi les Caucasiens et les Asiatiques [1,4].

La dysplasie osseuse floride est d'origine idiopathique dans 30% des cas [5,6], et peut présenter un caractère héréditaire à prédominance autosomique[5,6,7].

Il s'agit d'une lésion asymptomatique, de découverte fortuite dans la plupart des cas [3], mais peut être à l'origine d'une dysmorphose faciale ou d'une infection chronique [8,9].

Le but de ce travail est de mettre le point sur la prise en charge de la dysplasie osseuse floride à travers un cas clinique.

#### OBSERVATION CLINIQUE:

Il s'agit d'une femme, âgée de 53 ans, adressée par son médecin dentiste pour une tuméfaction mandibulaire évoluant depuis un an.

La patiente présentait sur le plan général une hypertension artérielle équilibrée.

A l'interrogatoire: la patiente a rapporté la découverte radiologique fortuite des lésions sans signes cliniques apparents. Une surveillance avec un suivi ont été décidés en concertation avec son médecin traitant. A un an de contrôle, la patiente a rapporté l'apparition de douleurs,

#### ABSTRACT:

The florid bone dysplasia is a benign and rare osteo-fibrous lesion of the maxillae. It is found mainly in women of black race, from 40 to 50 years old. It is most often accidental discovery, but can be complicated by facial dysmorphia and chronic osteitis.

This is the case of 53 years old patient, whom the reason for consultation was a tumefaction on the left mandibular evolving for a year.

The clinical examination revealed the presence of a swelling on the right side and the left side.

The radiological examination showed mixed symmetrical and poorly limited images. The treatment consisted in the excision of the lesions which were revealed by histopathological examination as bone dysplasias.

Through this clinical case, a diagnostic and therapeutic focus will be discussed in order to properly manage this type of lesion.

#### KEY WORDS:

Florid-osseous dysplasia, diagnosis, treatment.

#### INTRODUCTION:

Floridian bone dysplasia, formerly known as florid skeletal dysplasia, was first described by Melrose et al in 1976 [1]. It is a benign and rare fibroosseous lesion of the maxillae. [2] It mainly affects black women aged between 40 to 50 years old [3], but can also affect Caucasians and Asians [1,4].

Florid bone dysplasia is idiopathic in 30% of cases [5,6], but may be inherited, predominantly autosomal [5,6,7].

It is an asymptomatic lesion, fortuitous discovery in most cases [3], but can be the cause of facial dysmorphism or chronic infection [8,9].

The aim of this work is to highlight the management of florid bone dysplasia through a clinical case.

#### CLINICAL OBSERVATION:

This is a woman, aged 53 years old, referred to out institution by her dentist for a mandibular tumefaction evolving for a year.

The patient presented in the general plan a balanced hypertension.

During the interrogation, the patient reported the accidental radiological discovery of lesions with no apparent clinical signs. Surveillance with follow-up was decided in consultation with her doctor. After one year of control, the patient started to report intermittent,

intermittentes, spontanées et pulsatiles au niveau de la mandibule associé à des hyperesthésies surtout au niveau mandibulaire gauche.  
L'examen clinique exobuccal a montré une symétrie faciale respectée, et l'absence d'adénopathies à la palpation des aires ganglionnaires. (fig 1,2)

*spontaneous and pulsatile pain, located in the mandible and associated with hyperesthesia especially at the left mandibular level.  
The exobuccal clinical examination showed a symmetry on the face and the absence of lymphadenopathy on the palpation of the ganglionic areas (fig1,2).*



Fig 1, 2: Symétrie respectée et absence d'adénopathie  
Fig 1,2: Respected symmetry and absence of lymphadenopathy

L'examen endobuccal a montré une tuméfaction bilatérale plus prononcée au niveau gauche, de la région pré-molaire jusqu'à la zone rétro-molaire, la muqueuse de recouvrement était d'aspect normal. La palpation a révélé une tuméfaction dure, indolore, adhérente au plan profond, avec une irrégularité osseuse. (fig 3,4)

*The endobuccal examination showed a more pronounced bilateral swelling on the left, from the pre-molar region to the retromolar area, and the covering mucosa had a normal appearance. The palpation revealed a hard, painless swelling, adhering to the deep plane, with bone irregularity . (Fig 3.4)*

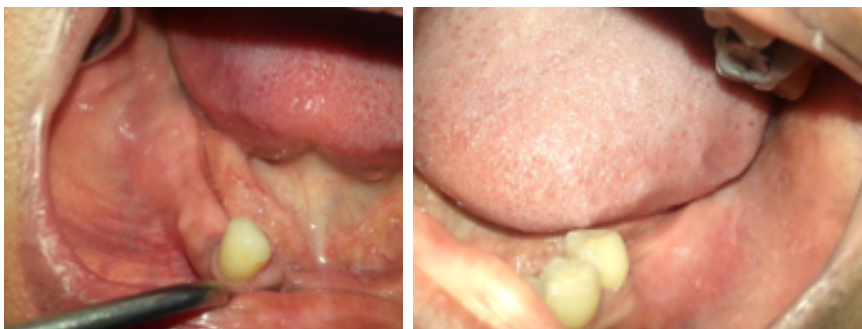


Figure 3 et 4 : Tuméfactions mandibulaires bilatérales  
Fig 3,4: Bilateral mandibular swelling

L'examen panoramique a présenté des lésions mandibulaires symétriques mixtes, à contour irrégulier aux limites imprécises. De même au niveau antéro-mandibulaire, l'image était mixte. Au maxillaire gauche on a noté une image radioclaire bien limitée, entourée d'un liseré périphérique, en rapport avec la 28 (fig 5).

*The panoramic examination showed mixed symmetrical mandibular lesions with irregular margins and imprecise boundaries. Similarly at the anteromandibular level, the image was mixed. In the left maxillary a well-defined clear image surrounded by a peripheral border, related to the 28th was noted (fig 5).*



figure5: La radiographie panoramique révèle la présence de lésions mandibulaires et maxillaire mixtes, à contour irrégulier aux limites imprécises.

Figure 5: The panoramic X-ray revealed the presence of mixed mandibular and maxillary lesions with irregular margins and imprecise boundaries.

L'examen cône beam a montré au niveau des coupes axiales et coronales, la rupture des corticales internes et externes par endroit (fig 6).

The cone beam examination showed at the level of the axial and coronal sections, the rupture of the internal and external cortices in some places (fig 6).

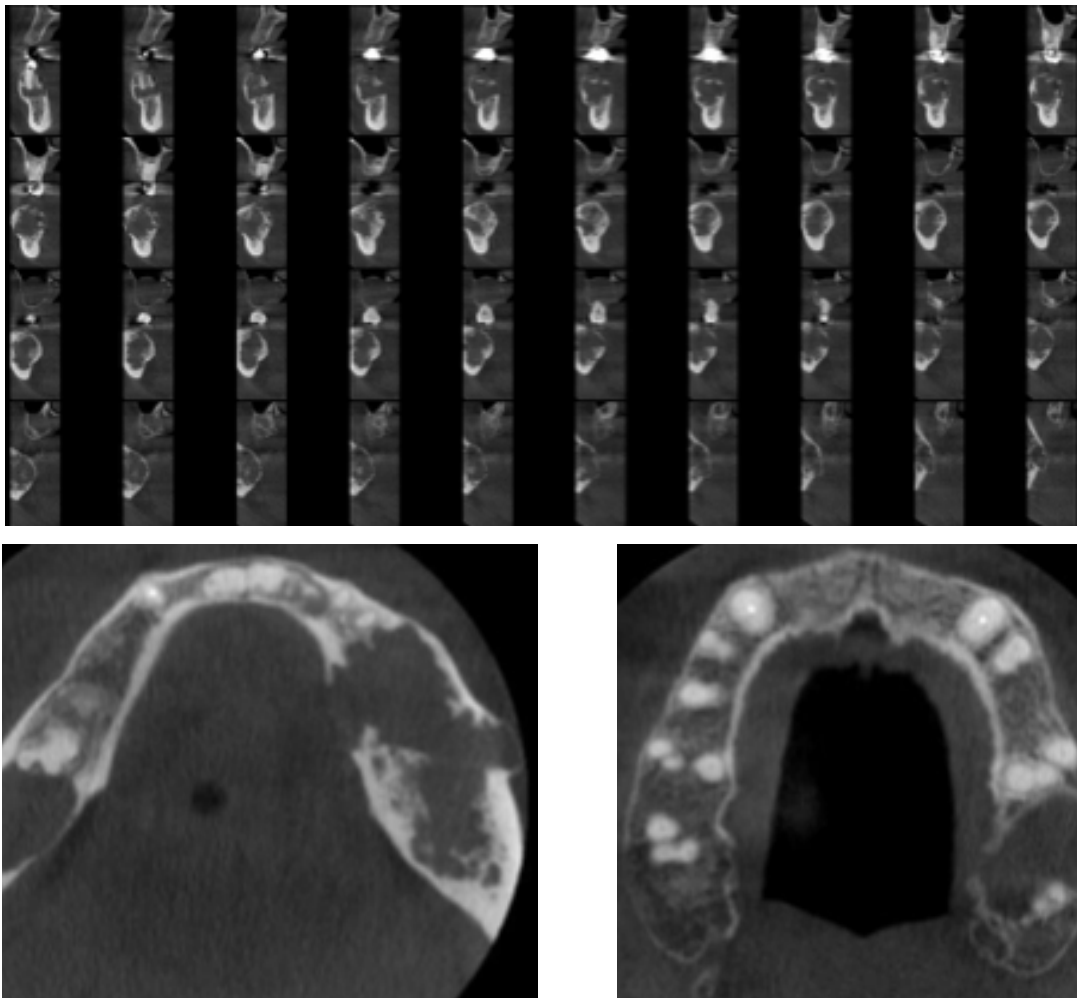


Figure 6 : Coupes coronales et axiales, montrant la rupture des corticales internes et externes par endroit.

Figure 6: Coronal and axial sections, showing the rupture of the internal and external cortices in places.

Au terme de tous ces éléments cliniques et radiologiques, le diagnostic évoqué était la dysplasie osseuse floride, vu la bilatéralité et le caractère des lésions, l'âge et l'origine ethnique de la patiente.

La prise en charge a consisté en l'exérèse des lésions mandibulaires symptomatiques, en 1er la lésion gauche et 6 mois après l'exérèse de la lésion droite a été réalisée.

En per-opératoire, nous avons relevé la présence d'un os friable, et vide par endroit ainsi qu'un liquide hémattique. La pièce opératoire a été adressée, pour un examen anatomopathologique.

L'examen anatomopathologique a montré après la décalcification des fragments osseux, des lamelles osseuses fragmentées irrégulières, calcifiées par place et entourant des logettes fibreuses et inflammatoires, siège d'un infiltrat inflammatoire d'intensité modérée polymorphe. Ainsi que l'absence de signes de malignité. Le liquide est un liquide hémorragique, après cyto-centrifugation et étalements, on note un fond paucicellulaire ponctué de noyaux nus, débris cellulaires et lymphocytes (fig 7).

At the end of all these clinical and radiological elements, the diagnosis mentioned was florid bone dysplasia, considering the bilaterality and the character of the lesions, the age and the ethnicity of the patient.

The treatment consisted of exeresis of the symptomatic mandibular lesions. First the left lesion was removed, and 6 months later, the right lesion was cleared out.

Inoperative, we found the presence of a crumbly bone, empty in places and we noted the presence of a hematic liquid.

The operation was followed by histopathological examination. The decalcification of the bone fragments showed the presence of, irregular fragmented bone lamellae calcified by place and surrounding fibrous and inflammatory stalls, seat of an inflammatory infiltrate of moderate polymorphous intensity. As well as the absence of signs of malignancy. The fluid is a haemorrhagic, after cyto-centrifugation and spreads, there is a paucicellular background punctuated with naked nuclei, cell debris and lymphocytes (Figure 7).

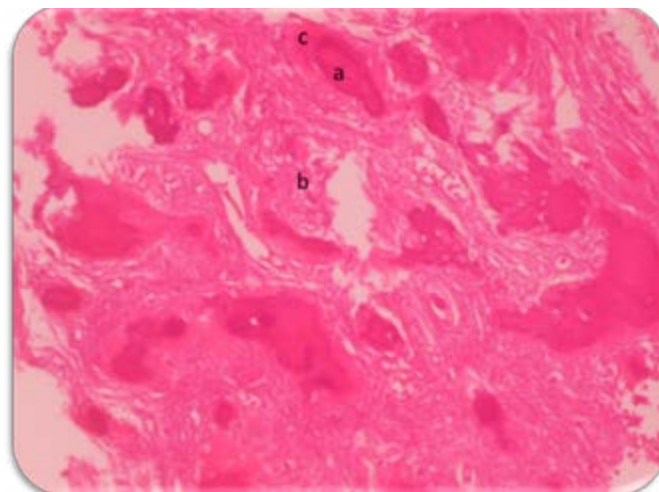


Figure 7 : A: Hyper-calcification. B : Fond fibroblastique. C : Ostéoblastes  
Fig 7: A: Hyper-calcification. B: Fibroblastic background. C: Osteoblasts

Après la confrontation de l'ensemble des éléments cliniques, radiologiques et histologiques le diagnostic retenu est celui de la dysplasie osseuse floride.

Le contrôle post-opératoire à deux ans, a montré une ré-ossification osseuse complète des deux sites opérés (Fig 8).

After the confrontation of all the clinical, radiological and histological elements, the diagnosis retained is that of florid bone dysplasia.

Postoperative control at two years showed complete bone re-ossification of both operated sites (Fig 8).

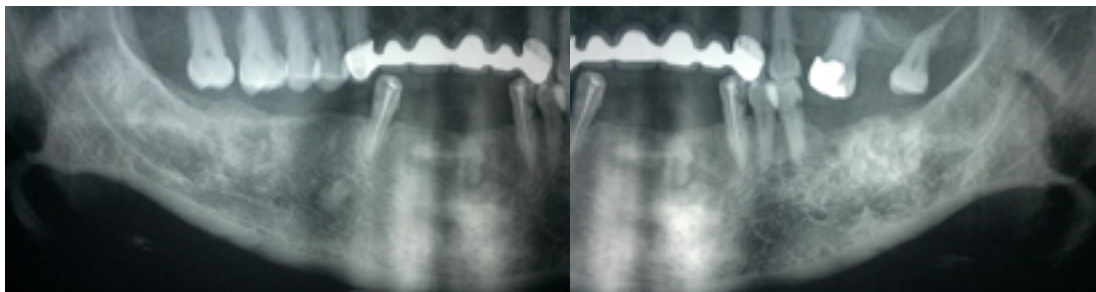


Figure 8: Une ré-ossification osseuse complète des deux sites opérés.  
Figure 8: Complete bone re-ossification of the two operated sites.

**COMMENTAIRE:**

La dysplasie osseuse floride a été décrite pour la 1<sup>ère</sup> fois par Melrose et al en 1976 [1].

C'est une lésion fibro-osseuse bénigne et rare des maxillaires, touchant les femmes de race noire de 40 à 50 ans et peut aussi être présente chez les Caucasiennes et Asiatiques [4]. Quelques rares cas, ont été rapportés chez les hommes [10].

Dans une revue systématique de la littérature, A. Thorawat et al ont constaté que 59% des cas de dysplasie osseuse apparaissent chez des patients africains (le cas de la patiente présentée), 37% chez les Asiatiques et 3% chez les Caucasiens [8].

La dysplasie osseuse focale correspond à des lésions se limitant à un seul secteur mandibulaire postérieur, et le terme de dysplasie orale floride est employé si plusieurs secteurs sont atteints [7,10,11].

Dysplasie Osseuse Floride est classé par l'organisation mondiale de la santé (OMS) en 2005 comme une lésion liée aux os, c'est une lésion fibro-osseuse non néoplasique [11].

Le diagnostic est essentiellement radiologique [12], par la présence de lésions multiples hétérogènes, sclérotiques, le plus souvent mandibulaires, bilatérales et symétriques [1,12].

La dysplasie osseuse floride présente trois types d'apparition radiographique en fonction du stade d'évolution [6,11,12,13].

Le premier stade est le stade ostéolytique où une zone radio transparente bien définie est trouvée avec une perte de la lamina dura et du ligament parodontal (14). Le deuxième stade ou stade cémentoclastique où de petites radiopacités apparaissent dans la zone radiotransparente due à la déposition de gouttelettes semblables à du ciment dans le tissu fibreux (14), c'est ce 2<sup>e</sup> stade qu'avait la patiente traitée, et le dernier stade où on voit une radio-opacité lobulaire tout au long de la lésion, entourée d'une zone radiotransparente (14).

Sur le plan histologique : La présence du ciment dans ces lésions est restée longtemps controversée, il a été décidé lors de la dernière révision de la classification des tumeurs par l'OMS en 2005 de renoncer à l'emploi du terme ciment, d'où la nouvelle nomination dysplasie osseuse floride [2].

Dans la dysplasie osseuse, les structures osseuses normales sont remplacées par de l'os fibreux métaplasique, avec un contenu variable en substance minéralisée [12].

La dysplasie osseuse floride se compose de masses sclérotiques denses, qui s'anastomosent et forment des couches de calcification type *cementum* noyées dans un fond fibroblastique [12], ainsi que la présence de l'os nécrosé ou d'un tissu nécrotique [4], et des fragments de tissu osseux à trabécules irrégulières et un matériau granuleux amorphe, compatible avec un tissu nécrotique (4).

En l'absence de symptômes cliniques, la prise en charge des DOF n'est pas nécessaire et le patient doit bénéficier d'un suivi radiologique régulier afin de déceler un éventuel changement dans le comportement des lésions, ainsi qu'une bonne hygiène [12]. La biopsie n'est pas indiquée car elle peut déclencher le passage à la phase symptomatique [3,5].

Il est maintenant admis qu'aucun traitement local ne doit

**COMMENT:**

*The florid bone dysplasia was first described by Melrose et al in 1976 [1].*

*It is a benign and rare fibroosseous lesion of the maxillary, affecting black women aged essentially between 40 to 50 years old, and may also be present in Caucasian and Asian women [4]. However, some rare cases have been reported in men [10].*

*In a systematic review of the literature, A. Thorawat et al found that 59% of cases of bone dysplasia occur in African patients (same as this case), 37% in Asians and 3% in Caucasians [8].*

*Focal bone dysplasia corresponds to lesions limited to a single posterior mandibular area, and the term florid oral dysplasia is used if several areas are affected [7,10,11].*

*Florida Bone Dysplasia is classified by the World Health Organization (WHO) in 2005 as a bone-related lesion; it is a non-neoplastic fibroosseous lesion [11].*

*The diagnosis is essentially radiological [12], defined by the presence of multiple, heterogeneous, sclerotic lesions, most often mandibular, bilateral and symmetrical [1,12].*

*The florid bone dysplasia presents three types of radiographic appearance according to the stage of evolution [6,11,12,13].*

*The first stage is the osteolytic stage where a clear, well-defined radiopaque area is found with loss of lamina dura and periodontal ligament (14). The second stage, or cementitic stage, in which small radiopacities appear in the radiolucent area due to the deposition of cement-like droplets in the fibrous tissue (14), is the 2<sup>nd</sup> stage of the patient's treatment, and the last stage where we see a lobular radiopacity all along the lesion, surrounded by a radiolucent area (14).*

*Histologically: The presence of cement in these lesions has long been controversial, it was decided at the last revision of the classification of tumors by the WHO in 2005 to give up the use of the term *cementum*, and use the term *florida bone dysplasia* [2].*

*In bone dysplasia, normal bone structures are replaced by metaplastic fibrous bone, with variable mineralized content [12].*

*Floridian bone dysplasia is composed of dense sclerotic masses, which anastomose and form *cementum* calcification layers embedded in a fibroblastic fundus [12], as well as the presence of necrotic bone or necrotic tissue [4], and fragments of bone tissue with irregular trabeculae and an amorphous granular material compatible with necrotic tissue (4).*

*In the absence of clinical symptoms, the management of FOD is not necessary and the patient should receive regular radiological monitoring to detect any change in lesion behavior as well as good hygiene [12]. The biopsy is not indicated because it can trigger the transition to the symptomatic phase [3,5].*

*It is now accepted that no local treatment should be*

être envisagé en dehors des phases de surinfection, en cas de symptomatologie il faut traiter en premier par une antibiothérapie et ensuite intervenir [3,10], les avulsions dentaires sont à proscrire dans les zones touchées, pour éviter le risque de surinfection [3,15]. Généralement, le traitement doit être non invasif, en raison de la nature avasculaire de l'os atteint [16].

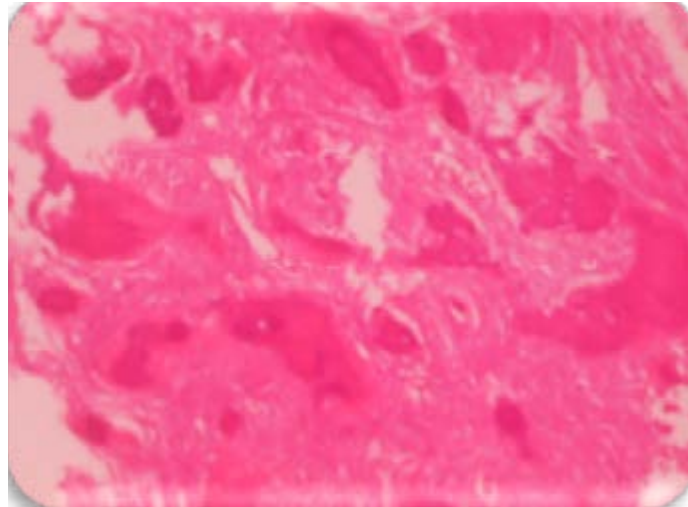


Figure 9 : La présence d'un tissu cémento-osseux irrégulier, avec un infiltrat inflammatoire.  
Figure 9: The presence of irregular cemento-osseous tissue with inflammatory infiltrate.

Aucune recommandation n'existe concernant la faisabilité des traitements orthodontiques [5].

Il est recommandé de conserver les dents dans la mesure du possible et d'utiliser les prothèses fixes plutôt que des prothèses amovibles car l'os sclérotique présente un faible potentiel de résorption physiologique sous une prothèse amovible, ce qui peut favoriser l'apparition d'ulcérations muqueuses exposant les lésions dans la cavité buccale [3]. L'ostéo-intégration des implants ne serait probablement pas réussie chez ces patients car l'os est anormal et pas bien vascularisé [5,10].

La dysplasie osseuse floride est une pathologie rare, dont le diagnostic nécessite une confrontation surtout des éléments cliniques et radiologiques. Il est important que les médecins dentistes soit bien informés sur ce type de lésions, afin d'éviter les interventions inutiles et à risque, qui peuvent entraîner des complications. ainsi peu de cas d'implantologie ou d'orthodontie chez des patients atteints de DOF ont été décrits dans la littérature.

**Conflit d'intérêt:** aucun conflit

*considered outside the superinfection phase, in cases of symptomatology it is necessary to treat first with antibiotic therapy and then intervene [3,10], dental avulsions should be avoided in the affected zones, to recoil the risk of superinfection [3,15]. Generally, treatment should be non-invasive, due to the avascular nature of the affected bone [16].*

*No recommendations exist regarding the feasibility of orthodontic treatment [5].*

*It is recommended to keep the teeth as far as possible and to use fixed prostheses rather than removable prostheses because the sclerotic bone has a low physiological resorption potential under a removable prosthesis, which can promote the appearance of mucosal ulcers exposing lesions in the oral cavity [3].*

*Osteointegration of implants would probably not be successful in these patients because the bone is abnormal and not well vascularized [5,10].*

*Floridian dysplasia is a rare pathology, whose diagnosis requires a confrontation mainly clinical and radiological elements. It is important for dentists to be well informed about these types of lesions, in order to avoid unnecessary and risky procedures, which can lead to complications. So few cases of implantology or orthodontics in patients with FOD have been described in the literature.*

**Conflict of interest:** no conflict

## RÉFÉRANCES / REFERENCES:

1. Benjamin M. et al *Dysplasie osseuse périapicale antérieure du maxillaire supérieur. Rev Mens Suisse Odontostomatol* Vol. 120 11/2010
2. Eya Moussaoui et al *Dysplasies osseuses florides : du diagnostic au traitement. A propos de trois cas. MBCB* 2013
3. Eugénie Massereau et al *Dysplasie osseuse floride mandibulaire : un cas de découverte fortuite et revue de la littérature. MBCB* 2015
4. Cyntia Helena Pereira et al *Florid cemento-osseous dysplasia and osteomyelitis: A case report of a simultaneous presentation. Rev OdontoCienc* 2012.
5. HamedMortazavi et al *Radiolucent rim as a possible diagnostic aid for differentiating jaw lesions. Imaging Science in Dentistry* 2015.
6. Bijay Kumar Das et al *Florid cemento osseous dysplasia. Journal of Oral and Maxillofacial Pathology* Apr 2013
7. Miller H Smith et al *Mandibular Actinomyces osteomyelitis complicating florid cemento-osseous dysplasia: case report. BMC Oral Health* 2011
8. P. E. Chandra Mouli. Et al *Florid Cemento -Osseous Dysplasia (FLCOD)- A very rare case report with literature-review. Oral medicine* Nov 2012
9. Adit Srivastava et al *Familial Florid Cemento-Osseous Dysplasia: A RareManifestation in an Indian Family. Hindawi Publishing Corporation* 2012
10. Vandana Shah et al *Florid cemento-osseous dysplasia- An unusual entity a case report. OMPJ* 2011
11. Raid S. Sadda, et al *Dental Management of Florid Cemento-Osseous Dysplasia. APRIL* 2014 • *The New York State Dental Journal*
12. TahaEmreKöse et al *Findings of Florid Cemento-Osseous Dysplasia: a Report of Three Cases. J Oral MaxillofacRes* 2013
13. Amit Thorawat et al *Familial florid Cemento-osseous dysplasia – case report and review of literature. Clinical Case Reports* 2015
14. Y.C. Sim, et al *Familial florid cemento-osseous dysplasia in mother and her identical twins: a report with review of the literatures. Oral Surgery* 2014
15. Alberto CONSOLARO *Florid cemento-osseous dysplasia: one of the few contraindications to osseointegrated implants Dental Press Implantol.* 2015
16. ErenYildirim, et al *Florid cemento osseous dysplasia: A rare case report evaluated with cone beam computed tomography .Journal of Oral and Maxillofacial Pathology* 2016
17. Ravi Prakash Sasankoti Mohan et al *Florid osseous dysplasia. BMJ Case Rep* 2013
18. Ghina Al Khourdaji *Dysplasie osseuse et lésions d'origine endodontique : stratégie de diagnostic différentiel. Le Fil Dentaire* juin 2018