

Adamantinoma de ossos longos*

Adamantinoma of the long bones

JOSÉ DONATO DE PRÓSpero¹, PEDRO PÉRICLES RIBEIRO BAPTISTA², ELIO CONSENTINO³,
CLÁUDIA DE CÁSSIA TANOUÉ HASEGAWA⁴, MARIA FERNANDA CARRIEL AMARY⁵, EDUARDO SADAÓ YONAMINE⁶

RESUMO

Objetivos: Estudar retrospectivamente 18 casos de pacientes com adamantinoma de ossos longos, todos localizados na tíbia; ressaltar a importância da biópsia e a correlação com métodos de imagem para diagnóstico diferencial com osteofibrodisplasia e displasia fibrosa; tecer considerações sobre a natureza do adamantinoma de ossos longos, cujo nome deve-se à analogia histológica com o adaman-

tinoma (ameloblastoma) da mandíbula. **Métodos:** Foram analisados o quadro clínico, imagens e exames anatomopatológicos complementados com imunohistoquímica e a evolução dos pacientes. Todos foram submetidos a tratamento cirúrgico, 17 com “tibalização” da fíbula e os demais com amputação. **Resultados:** A evolução pós-cirúrgica mostrou-se imprevisível e não relacionada com os aspectos clínicos ou histopatológicos. Dois pacientes evoluíram com metástases pulmonares e morreram. Seis não tiveram recidivas ou metástases e estão clinicamente curados. Os demais, após alta hospitalar não retornaram à consulta. **Conclusões:** Trata-se de rara neoplasia constituída por estruturas epiteliais e mesenquimais que devem ser diagnosticadas com precisão, antes de qualquer procedimento. O tratamento é cirúrgico com ressecção do tumor com boa margem oncológica. O comportamento biológico é variável e imprevisível.

Descritores – Adamantinoma; Tíbia/patologia; Displasia fibrosa óssea/diagnóstico; Diagnóstico diferencial; Diagnóstico por imagem

* Trabalho realizado nos Departamentos de Ciências Patológicas e de Ortopedia e Traumatologia da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.

1. Livre Docente, Professor Titular de Anatomia Patológica do Departamento de Ciências Patológicas da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.
2. Doutor, Professor e Chefe da Disciplina de Oncologia Ortopédica do Departamento de Ortopedia e Traumatologia da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.
3. Assistente de Ortopedista e Oncologista da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.
4. Acadêmica do 6º ano da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.
5. Doutora, Assistente de Anatomia Patológica do Departamento de Ciências Patológicas da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.
6. Doutor, Assistente da Disciplina de Oncologia Ortopédica do Departamento de Ortopedia e Traumatologia da Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo – FCMSC-SP – São Paulo (SP), Brasil.

Endereço para correspondência: Faculdade de Ciências Médicas da Santa Casa de São Paulo, Departamento de Ciências Patológicas, Rua Dr. Cesário Motta Jr., 112, Santa Cecília – 01221-020 – São Paulo (SP), Brasil. E-mail: ceanatom@santacasasp.org.br

Recebido em 22/2/08. Aprovado para publicação em 30/7/08.

Copyright RBO2008

ABSTRACT

Objective: To make a retrospective study of 18 cases of patients with adamantinoma of the long bone, all of them located in the tibia; to point to the relevance of biopsy and the correlation with imaging methods in order to have a differential diagnosis with osteofibrous dysplasia and fibrous dysplasia; to comment on the nature of long bone adamantinoma, whose name is due to the histological analogy with the adamantinoma (ameloblastoma) of the jaw. **Methods:** A review was made of the clinical condition, images, and anatomopathological exams

supplemented with immunohistochemical essays, and the evolution of the patients. All of them were submitted to surgical treatment, 17 with "tibialization" of the fibula and the others with amputation. **Results:** The post-surgical evolution showed to be unpredictable and not related to clinical or histopathological aspects. Two patients had an evolution with lung metastasis and died. Six did not present recurrent disease or metastases, and are clinically cured. The others, after being released from hospital, did not return for consultation. **Conclusions:** This is a rare neoplasia made of epithelial and mesenchymal structures that must be accurately diagnosed before any procedure is attempted. Treatment is surgical, with tumor resection with a good oncologic margin. The biological behavior is varied and unpredictable.

Keywords – Adamantinoma; Tibia/pathology; Fibrous dysplasia of bone; Diagnosis, differential; Diagnostic imaging

INTRODUÇÃO

O adamantinoma de ossos longos é rara neoplasia intra-óssea, na grande maioria dos casos localizada na diáfise da tíbia e, por isso, também conhecida como "adamantinoma da tíbia"⁽¹⁾. Outras localizações menos comuns têm sido relatadas. É tumor maligno bifásico, composto por estruturas epiteliais e mesenquimais, de baixo grau⁽¹⁻²⁾.

Descrito por Fischer, em 1913, deve seu nome à analogia histológica com o adamantinoma mandibular⁽³⁾. Atualmente nomeado ameloblastoma, origina-se dos ameloblastos, células do esboço do órgão do esmalte dentário⁽¹⁾.

A histogênese das células do adamantinoma de ossos longos sempre foi considerada obscura. Embora na maioria das vezes se admita sua natureza epitelial, alguns autores insistiam em considerá-las de natureza vascular⁽⁴⁾. Com o advento da imunohistoquímica, está estabelecido que são células epiteliais, embora ainda de origem desconhecida⁽⁵⁻⁶⁾. A semelhança histológica com o tumor mandibular não permite considerar qualquer relação de uma com a outra neoplasia^(1,5-6). A

possível relação com a osteofibrodisplasia, de ocorrência exclusiva na cortical óssea, ainda é alvo de discussão⁽⁷⁻¹⁰⁾. Esta possibilidade é remota. O diagnóstico diferencial entre um e outro processo, pela conduta cirúrgica a ser adotada, deve sempre ser cogitado. A osteofibrodisplasia apresenta boa evolução pós-operatória, sem sinais de malignidade, como ocorre na maioria dos casos de adamantinoma^(1,7).

O adamantinoma de ossos longos acomete principalmente adultos e as manifestações clínicas mais comuns são dor, aumento de volume e/ou deformidade progressiva no local acometido^(1-2,11). Raramente esta neoplasia é descrita em crianças ou em adolescentes⁽¹²⁻¹³⁾.

Por tratar-se de neoplasia que apresenta aspectos clínicos, de imagem, anatomopatológicos, terapêuticos e evolutivos peculiares, como também pela importância dos diagnósticos diferenciais, apresentamos o resultado do estudo dos casos de pacientes do Registro de Patologia Óssea do Departamento de Ciências Patológicas da Faculdade de Medicina da Santa Casa de São Paulo, a fim de contribuir com a casuística e cada vez maior conhecimento desta rara neoplasia.

MÉTODOS

Foram estudados, retrospectivamente, os prontuários de 18 pacientes, sendo 10 do sexo feminino (55,5%) e oito do masculino (44,5%). Predominou a raça branca, com 16 casos. A idade dos pacientes variou de 12 a 60 anos, média de 27 anos. Todos os tumores localizavam-se na diáfise de tíbia, exceto um único, detectado na metáfise distal (tabela 1).

Todos foram revistos e analisados sob aspectos clínicos, de imagem, exames anatomopatológicos complementados com imunohistoquímica, conduta e dados da evolução pós-operatória⁽⁵⁾. Realizou-se, também, revisão bibliográfica com propósito de atualizar as teorias sobre a natureza do tumor e avaliar a experiência de diversos autores quanto à evolução dos pacientes.

A principal queixa foi de dor progressivamente maior, acompanhada de claudicação e, às vezes, de deformidade do osso comprometido. O tempo de percepção do paciente quanto à alteração óssea variou de caso para caso. Alguns pacientes procuraram tratamento dois a três meses após o início dos sintomas e ou-

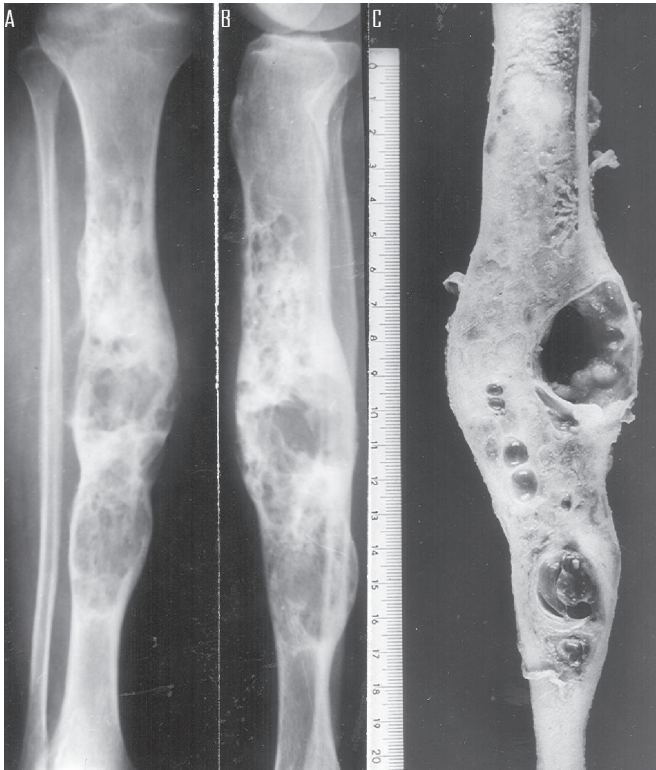


Figura 1 – Adamantinoma de ossos longos. Caso nº 1 – E.M., 36 anos de idade, feminino. Dor e deformidade na perna havia dois anos, com piora progressiva desde o primeiro atendimento. **A)** Radiografias: lesão na diáfise da tíbia, com diversos cistos entremeados por áreas densas. A cortical está irregular, sem alterações do periósteo. **B)** Superfície de corte da peça cirúrgica: o tumor apresenta cavidades císticas irregulares entremeadas por áreas densas. Nas extremidades há tecido ósseo de aspecto normal.

tros, após um ano ou mais. Um dos pacientes frequentou, durante cerca de dois anos, diversos hospitais, que indicaram amputação da perna, conduta que não aceitou. Ao ser atendido no Departamento de Ortopedia e Traumatologia da Santa Casa de São Paulo, concordou com a ressecção cirúrgica do tumor, a qual foi realizada e complementada com tibialização da fíbula, com nítido sucesso. Após cinco anos de evolução, a paciente estava clinicamente curada, com seu membro inferior conservado.

Exames clínicos e laboratoriais não contribuíram para o diagnóstico, o qual somente foi confirmado por acurado exame anatomopatológico.

O aspecto das imagens radiográficas variou de caso para caso, mas em geral evidenciou lesão central ao



Figura 2 – Adamantinoma de ossos longos. Caso nº 10 – M.F.S., 33 anos de idade. Deformidade metadiáfisária proximal da tíbia por tumor que apresenta áreas de osteólise que se alternam com outras densas de aspecto reacional, sem alterações periosteais.

longo da diáfise da tíbia (figuras 1 e 2), com deformidade e alternância de osteólise com áreas de condensação reacional do osso, às vezes com alterações císticas (figura 1). A reação periosteal foi mínima em dois casos, inexistente nos demais. Aspecto de tumor denso e homogêneo foi observado em apenas um caso (figura 3).

O diagnóstico diferencial com a osteofibrodisplasia, por métodos de imagem, é feito a partir do fato de que este processo se restringe à cortical, que se torna irregular, o que pode ser comprovado por tomografia computadorizada ou pela ressonância magnética, que excluem a invasão do canal medular (figura 4). O que distingue a displasia fibrosa é a substituição da estrutura óssea de modo homogêneo, em “vidro fosco”. A biópsia nem sempre é eficaz para diagnóstico diferen-

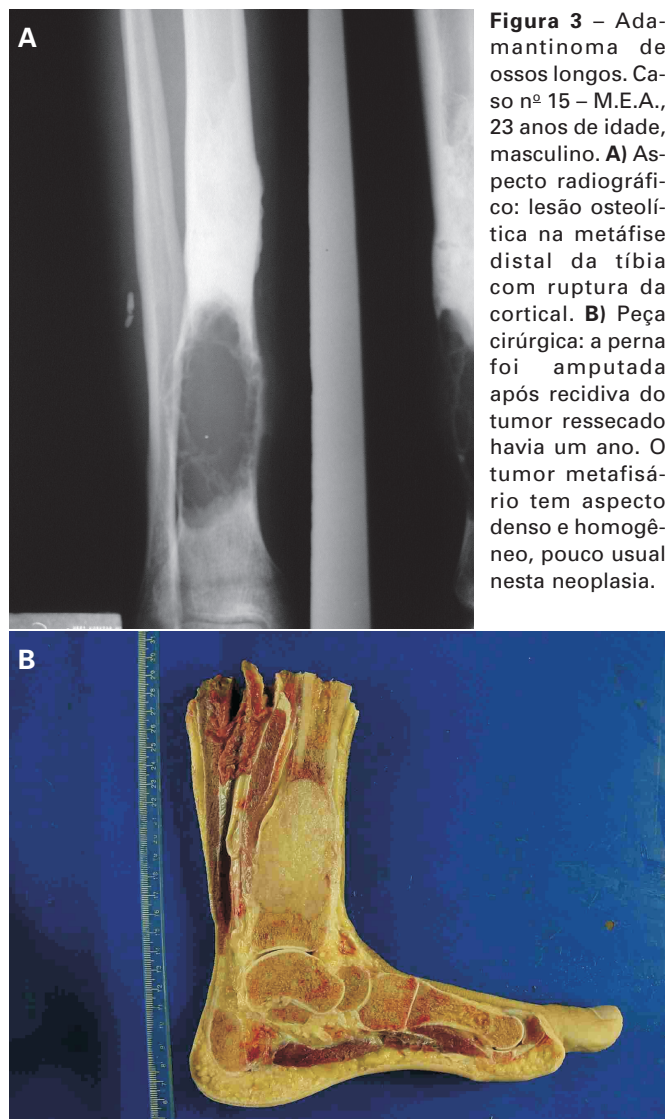


Figura 3 – Adamantinoma de ossos longos. Caso nº 15 – M.E.A., 23 anos de idade, masculino. **A)** Aspecto radiográfico: lesão osteolítica na metáfise distal da tíbia com ruptura da cortical. **B)** Peça cirúrgica: a perna foi amputada após recidiva do tumor ressecado havia um ano. O tumor metafisário tem aspecto denso e homogêneo, pouco usual nesta neoplasia.

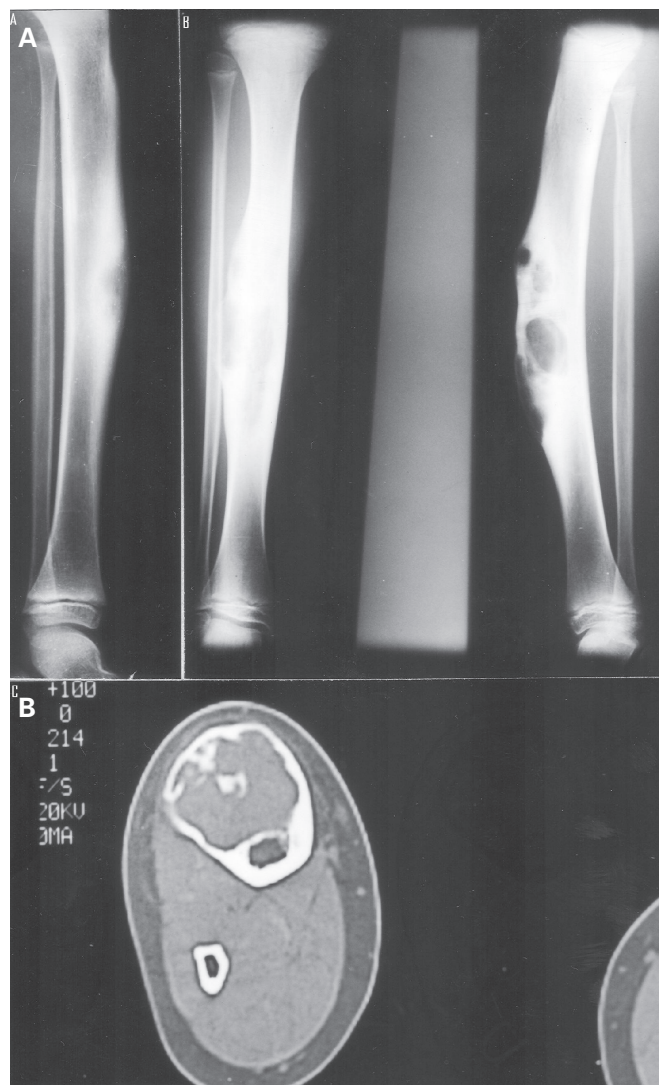


Figura 4 – Osteofibrodisplasia. 19 anos de idade, masculino. **A)** Radiografias: lesão densa e irregular na cortical da diáfise da tíbia. **B)** Tomografia computadorizada que evidencia o comprometimento cortical do processo.

cial, pois, dependendo da área biopsiada, pode haver absoluta semelhança histológica entre os três processos patológicos: adamantinoma de ossos longos, displasia fibrosa e osteofibrodisplasia. A preocupação, portanto, deve estar sempre presente, em virtude da diferença de conduta terapêutica.

Ao exame macroscópico, o tumor substitui a estrutura óssea da diáfise da tíbia, com áreas densas envolvendo focos de osteólise e formações císticas de tamanhos variados. O aspecto macroscópico também assemelha-se ao do adamantinoma (ameloblastoma) mandibular, o que não significa qualquer relação de

um tumor com o outro (figura 1). Em apenas um caso, de localização metafisária, o tumor tinha aspecto sólido, semelhante ao da displasia fibrosa (figura 3). Não raramente, há deformidade óssea, com adelgaçamento da cortical que, às vezes, se rompe, com escassa ou nenhuma reação periosteal (figura 1).

Microscopicamente, a característica do adamantinoma de ossos longos é a presença dos blocos ou cordões de células de aspecto epitelial. Na periferia destes blocos as células dispõem-se em paliçada e no cen-

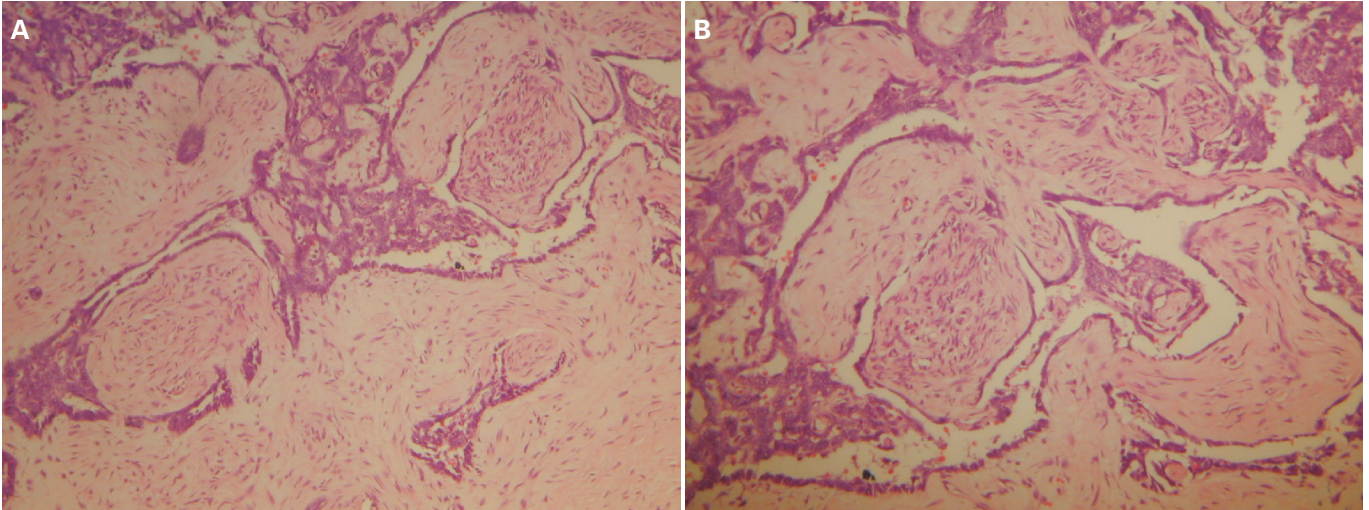


Figura 5 – Adamantinoma de ossos longos. Aspecto microscópico: blocos ou cordões epiteliais, delimitando microcavidades irregulares circundadas por estroma fibroso. (HE, 40 x, 120 x).

tro são estreladas, às vezes circundando espaços microcísticos ou lacunas irregulares (figura 5). Estas estruturas lembram as neoplasias basalóides, como o carcinoma basocelular e os tumores adamantinóides em geral, principalmente o adamantinoma mandibular, atualmente designado ameloblastoma. Esta analogia histológica motivou o nome de adamantinoma ao tumor de ossos longos. Estes blocos celulares epiteliais estão circundados por proliferação mesenquimal, fibrosa com traves osteóides, idênticas às da displasia fibrosa e da osteofibrodisplasia, motivo pelo qual biópsias nestes locais podem levar a falso diagnóstico destas entidades. Nesses casos, mesmo que clínica e radiologicamente houver suspeita de adamantinoma de ossos longos, o diagnóstico somente será definitivo após o achado das estruturas epiteliais adamantinóides, às vezes somente identificadas ao exame anatomopatológico de toda a peça de ressecção cirúrgica.

RESULTADOS

Confirmado o diagnóstico de adamantinoma, os pacientes foram submetidos a tratamento cirúrgico com indicação para ressecção do tumor com boa margem oncológica. À exceção de um caso, em todos foi realizada ressecção do tumor com tibialização da fíbula.

Os resultados estão resumidos na tabela 1.

DISCUSSÃO

Trata-se de neoplasia rara, cuja natureza epitelial foi comprovada por métodos de imunohistoquímica. Corresponde a cerca de 0,1% a 0,4% dos tumores ósseos primários⁽¹⁻²⁾. Pela semelhança histológica das células neoplásicas com as do adamantinoma da mandíbula, hoje denominado ameloblastoma por sua origem nos ameloblastos do órgão do esmalte dentário. Embora reconhecidamente epiteliais, as células que o caracterizam são de origem desconhecida⁽¹²⁾.

Em geral, é descrito como neoplasia de adultos, mas não são raros os casos em crianças e em adolescentes⁽¹³⁻¹⁴⁾. Em nossa casuística (tabela 1), a idade variou de 12 a 60 anos, com mediana de 27 anos. Entre os pacientes, sete (38%) tinham menos do que 20 anos de idade. Em cerca de 85% dos casos o tumor localizava-se na tíbia. O comprometimento simultâneo da fíbula pode ocorrer em cerca de 10% dos casos⁽¹⁵⁾. Raramente é descrito em outros ossos, na pelve e arcos costais⁽¹⁵⁻¹⁶⁾. Todos os nossos casos localizavam-se na tíbia.

Clinicamente manifestaram-se dor e deformidade progressivas no local afetado^(1-2,11), raramente com história pregressa de fratura, inexistente em nossos casos. Os métodos de imagem evidenciam lesão intra-óssea, inicialmente excêntrica, lítica, de limites im-

TABELA 1
Adamantinoma de ossos longos. Casuística e evolução

Caso	Nome	Idade/ anos	Sexo	Cor	Local	Evolução
1	E.M.	36	F	B	Tíbia	Tibialização da fíbula. Cura após cinco anos.
2	M.M.	21	F	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
3	V.C.M.	12	M	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
4	S.M.O.F.	15	F	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
5	M.A.C.	14	F	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
6	J.T.Q.	43	M	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
7	A.M.P.G.	34	F	N	Tíbia	Metástases pulmonares seis meses após ressecção tibial – óbito.
8	M.V.S.S.	19	F	P	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
9	P.M.C.	23	F	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
10	M.F.S.	33	F	P	Tíbia	Boa dois anos após tibialização da fíbula.
11	W.S.C.	23	M	B	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
12	E.M.	60	F	B	Tíbia	Boa dois anos após tibialização da fíbula.
13	A.M.C.	19	M	B	Tíbia	Boa cinco anos após tibialização da fíbula.
14	L.G.M.	53	M	B	Tíbia	Tibialização da fíbula, recidiva, amputação após um ano, metástase pulmonar – óbito.
15	M.E.A.	23	M	B	Tíbia	Recidiva. Amputação. Metástases pulmonares e cardíacas – óbito.
16	J.S.B.	27	M	N	Tíbia	Não retornou após a cirurgia.
17	G.M.S.	14	F	B	Tíbia	Bem um ano após tibialização da fíbula.
18	A.A.M.	19	M	B	Tíbia	Bem oito meses após tibialização da fíbula.

F = feminino; M = masculino; B = branco; N = negro.

precisos, alongada, com maior eixo ao longo do osso⁽¹⁻²⁾. Além de radiografias simples, realizamos tomografia computadorizada (TC) para evidenciar a exata localização do tumor, se cortical ou central; a ressonância magnética (RM) foi útil para avaliar a extensão do tumor, a fim de orientar o cirurgião quanto aos limites da ressecção cirúrgica.

Metástases podem ocorrer em 10 a 20% dos casos, sendo os pulmões o sítio mais acometido⁽¹⁷⁻¹⁹⁾. Raramente são detectadas metástases para linfonodos ou para outros ossos^(1-2,5,11). A ressecção marginal está associada a maior risco de recidiva e metástase^(17-18,20).

A evolução pós-operatória é imprevisível. Em alguns casos, as metástases são precoces e, em outros, tardias, com evolução para a morte, como ocorreu em três dos nossos pacientes. Em outros seis pacientes, ao contrário, a evolução foi relativamente benigna e, em tempo variável, sobreviveram livres da doença.

À exceção de um caso, nossos outros pacientes foram operados com a técnica de transposição da fíbula. Outros métodos, como utilização de enxerto, têm sido empregados⁽²¹⁾. O exame anatomopatológico foi complementado com imunohistoquímica, para estudo da natureza das células e diagnóstico diferencial. Neste particular, tanto por imagens como pelo exame anatomopatológico, o diferencial deve ser feito com displasia fibrosa e osteofibrodisplasia.

A osteofibrodisplasia, descrita por Campanacci⁽¹⁰⁾, permite diagnóstico diferencial por métodos de imagens, principalmente por tomografia computadorizada, pois é processo que se restringe à cortical. Na displasia fibrosa, os métodos de imagem evidenciam lesão óssea mais homogênea, em “vidro fosco”.

Ao exame microscópico, o adamantinoma de ossos longos e a osteofibrodisplasia apresentam áreas idênticas às da displasia fibrosa. O diagnóstico por bióp-

sia, portanto, pode ser equivocado e somente será definitivo pela obrigatória presença dos blocos de células epiteliais que, com frequência, não são identificados no material de biópsia, só sendo detectados quando do exame de toda a peça cirurgicamente ressecada.

O seguimento dos pacientes por longo prazo é fator de extrema importância para avaliarmos a evolução da doença. Infelizmente, porém, diversos pacientes não retornaram à consulta no pós-operatório (tabela 1), o que não nos permitiu avaliar a evolução de todos os casos. Em três de nossos pacientes, a avaliação pós-operatória a longo prazo permitiu estabelecer que esta neoplasia, embora maligna, se corretamente removida, pode evoluir satisfatoriamente até mesmo para cura, motivo pelo qual não aconselhamos amputação do membro como primeira conduta. A mesma observação é relatada por diversos autores. Alguns referem casos com boa evolução até seis anos de pós-operatório e outros com recidiva e metástases pulmonares em tempo variável após a intervenção cirúrgica⁽¹⁸⁻²⁰⁾.

A histogênese do adamantinoma de ossos longos foi sempre objeto de discussão. Diversos autores consideravam tratar-se de neoplasia vascular pelas lacunas

acima descritas. Atualmente, porém, os métodos de imunohistoquímica permitem afirmar que se trata de neoplasia bifásica, com componente epitelial, com positividade para citoqueratinas AE1 e AE3 e negatividade para marcadores de vasos como o CD 3 e CD 34⁽⁵⁾. Em torno das estruturas epiteliais, a proliferação é de natureza mesenquimal, com ossificação em traves osteóides irregularmente mineralizadas, indistinguível da displasia fibrosa.

CONCLUSÕES

O adamantinoma de ossos longos é neoplasia maligna rara de baixo grau, de crescimento lento, na maioria das vezes localizada na tíbia.

O diagnóstico histopatológico somente poderá ser feito pela presença das formações epiteliais adamantinóides, pois as estruturas mesenquimais são indistinguíveis, tanto da osteofibrodisplasia como da displasia fibrosa.

A ressecção cirúrgica do tumor pode levar à cura, embora de maneira imprevisível; alguns casos evoluem com recidiva, metástases e morte.

REFERÊNCIAS

- Dorfman HD, Czerniak B. Bone tumors. St. Louis: Mosby; 1998. p. 953-73.
- Próspero JD. Adamantinoma de ossos longos. In: Próspero JD. Tumores ósseos. São Paulo: Roca; 2001. p. 197-201.
- Fischer B. [Über ein primäres Adamantinom der tibia]. Frankfurt Zeitschr Pathol. 1913;12:422-41. German.
- Hogendoorn PCW, Hashimoto H. Adamantinoma. In: Fletcher CDM, Unni KK, Mertens F, editors. Pathology and genetics of tumours of soft tissue and bone. Lyon: IARC Press; 2002. p. 332-4.
- Dabbs DJ, editor. Diagnostic immunohistochemistry. 2nd ed. Philadelphia: Churchill Livingstone; 2006. p.104-6.
- Kuruvilla G, Steiner GC. Osteofibrous dysplasia-like adamantinoma of bone: a report of five cases with immunohistochemical and ultrastructural studies. Hum Pathol. 1998;29(8):809-14.
- Hazelbag HM, Wessels JW, Mollevangers P, van den Berg E, Molenaar WM, Hogendoorn PC. Cytogenetic analysis of adamantinoma of long bones: further indications for a common histogenesis with osteofibrous dysplasia. Cancer Genet Cytogenet. 1997;97(1):5-11.
- Hatori M, Watanabe M, Hosaka M, Sasano H, Narita M, Kokubun S. A classic adamantinoma arising from osteofibrous dysplasia-like adamantinoma in the lower leg: a case report and review of the literature. Tohoku J Exp Med. 2006;209(1):53-9.
- Hazelbag HM, Hogendoorn PC. Adamantinoma of the long bones: an anatomico-clinical review and its relationship with osteofibrous dysplasia. Ann Pathol. 2001;21(6):499-511. French.
- Campanacci M. Osteofibrous dysplasia of long bones: a new clinical entity. Ital J Orthop Traumatol. 1976;2(2):221-37.
- Desai SS, Jambhekar N, Agarwal M, Puri A, Merchant N. Adamantinoma of tibia: a study of 12 cases. J Surg Oncol. 2006;93(5):429-33.
- Deyrup AT, Montag AG. Epithelioid and epithelial neoplasms of bone. Arch Pathol Lab Med. 2007;131(2):205-16.
- Van Rijn R, Bras J, Schaap G, van den Berg H, Maas M. Adamantinoma in childhood: report of six cases and review of the literature. Pediatr Radiol. 2006;36(10):1068-74.
- Sarisozen B, Durak K, Ozturk C. Adamantinoma of the tibia in a nine-year-old child. Acta Orthop Belg. 2002;68(4):412-6.

15. Park YK, Ryu KN, Han CS. Synchronous intracortical adamantinomas with keratin cyst formation. *Skeletal Radiol.* 2006;35(3):185-9.
16. Ulmar B, Delling G, Werner M, Huch K, Reichel H. Classical and atypical location of adamantinomas – presentation of two cases. *Onkologie.* 2006;29(6):276-8.
17. Kanakaraddi SV, Nagaraj G, Ravinath TM. Adamantinoma of the tibia with late skeletal metastasis: an unusual presentation. *J Bone Joint Surg Br.* 2007;89(3):388-9.
18. Flowers R, Baliga M, Guo M, Liu SS. Tibial adamantinoma with local recurrence and pulmonary metastasis: report of a case with histocytologic findings. *Acta Cytol.* 2006;50(5):567-73.
19. Panchwagh Y, Puri A, Agarwal M, Chinoy R, Jambhekar N. Case report: metastatic adamantinoma of the tibia – an unusual presentation. *Skeletal Radiol.* 2006;35(3):190-3.
20. Filippou DK, Papadopoulos V, Kiparidou E, Demertzis NT. Adamantinoma of tibia: a case of late local recurrence along with lung metastases. *J Postgrad Med.* 2003;49(1):75-7.
21. Frey SP, Harges J, Ahrens H, Winkelmann W, Gosheger G. Total tibia replacement using an allograft (in patient with adamantinoma). Case report and review of literature. *J Cancer Res Clin Oncol.* 2008;134(4):427-31.

Declaração de inexistência de conflitos de interesse: Neste trabalho não há conflito de interesses financeiros ou de qualquer outra natureza.
