



RELATO DE CASO

## Multifocal myositis ossificans in masticatory muscles 30 years after gunshot wound: case report and literature review<sup>☆</sup>



## Miosite ossificante multifocal em músculos mastigatórios 30 anos após ferimento com arma de fogo: relato de caso e revisão da literatura

Beatriz Godoi Cavalheiro<sup>a,\*</sup>, Cláudio Roberto Cernea<sup>b</sup> e Lenine Garcia Brandão<sup>b</sup>

<sup>a</sup> Universidade de São Paulo (USP), Faculdade de Medicina, Instituto do Câncer do Estado de São Paulo (Icesp), São Paulo, SP, Brasil

<sup>b</sup> Universidade de São Paulo (USP), Faculdade de Medicina, Departamento de Cirurgia de Cabeça e Pescoço, São Paulo, SP, Brasil

Recebido em 26 de outubro de 2015; aceito em 8 de março de 2016

Disponível na Internet em 19 de maio de 2017

### Introdução

A miosite ossificante é uma condição benigna, não neoplásica, caracterizada pela formação óssea heterotópica nos músculos e em outros tecidos moles, frequentemente associada a traumas diretos e agudos.<sup>1</sup> Geralmente ocorre como lesão única nas extremidades, principalmente nas extremidades inferiores, mais suscetíveis a traumas. Nos últimos 50 anos, foram relatadas poucas dezenas de casos em musculatura de face e seu diagnóstico diferencial faz-se com condições malignas, especialmente quando não se identifica trauma associado.

Relatamos o caso de um homem que desenvolveu três lesões compatíveis com miosite ossificante, passados 30 anos de um ferimento em face.

### Relato de caso

Homem, 71 anos, foi admitido com história de trismo, dor em topografia de sulco gângivo labial superior esquerdo e dificuldade de ajuste de prótese dentária parcial há 20 dias.

Referia história de ferimento por arma de fogo há cerca de 30 anos, com orifício de entrada em bochecha direita, sem orifício de saída. Na época, foi tratado em um serviço de trauma e submetido a fixações de fratura facial e enxertos ósseos no palato e rebordo alveolar. Referia também antecedentes de *diabetes mellitus* não insulino dependente e hipertensão arterial sistêmica, compensados, e prostatectomia há oito anos por adenocarcinoma de próstata. Seus níveis séricos de cálcio, fosfatase alcalina e parato-hormônio encontravam-se dentro dos limites das referências laboratoriais.

Apresentava-se em ótimo estado geral, com abaulamento malar à esquerda e discreta hiperemia cutânea associada. Notava-se trismo com abertura de boca de 2 cm e

DOI se refere ao artigo:

<http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2016.03.018>

<sup>☆</sup> Como citar este artigo: Cavalheiro BG, Cernea CR, Brandão LG. Multifocal myositis ossificans in masticatory muscles 30 years after gunshot wound: case report and literature review. Braz J Otorhinolaryngol. 2019;85:259–62.

\* Autor para correspondência.

E-mails: [bgcavalheiro@yahoo.com.br](mailto:bgcavalheiro@yahoo.com.br), [biacav@yahoo.com](mailto:biacav@yahoo.com)

(B.G. Cavalheiro).

A revisão por pares é da responsabilidade da Associação Brasileira de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial.



**Figura 1** Exame de tomografia computadorizada. Identificação da maior lesão, com interior radiolúcida e periferia óssea compacta e edema dos tecidos moles adjacentes.

abaulamento em mucosa jugal, próximo ao sulco gângvico labial, com mucosa íntegra, onde se palpava lesão de 1,5 cm, bem delimitada, endurecida e fixa às estruturas profundas.

Submetido à tomografia computadorizada de face, identificou-se projétil metálico situado junto aos espaços bucal e mastigatório esquerdos, lateralmente à maxila, além de fragmentos metálicos adjacentes ao arco zigomático e no espaço mastigatório. Foram identificadas deformidades nas paredes do seio maxilar ipsilateral com perda óssea e fraturas consolidadas. Fragmentos metálicos também foram encontrados na fossa infratemporal direita, com fratura da parede posterior do seio maxilar, perda óssea em palato e parede anterior do seio maxilar esquerdo e esclerose do arco zigomático no mesmo lado. Três formações amorfas densamente ossificadas com padrão cortical/medular foram observadas no tecido subcutâneo da região maxilar e espaço mastigatório esquerdo, entre a musculatura temporal, masseter e mímica, a maior media 3,5 cm × 2,5 cm × 1,5 cm (figs. 1 e 2). Foram observados linfonodos aumentados em número nos níveis I e II cervicais à direita.

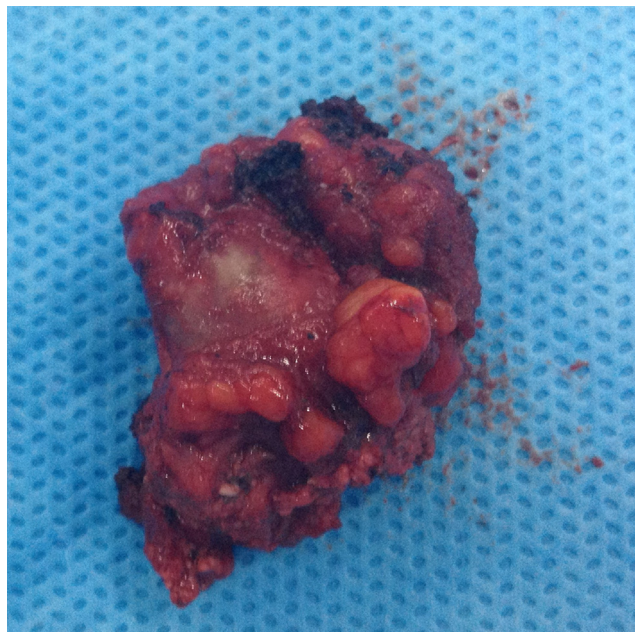
O paciente foi submetido à exérese das lesões através de incisão mucosa gengivolabial superior esquerda, identificando-se estruturas endurecidas e bastante aderidas aos tecidos adjacentes (fig. 3). Fragmentos do projétil também foram removidos da musculatura pterigoidea, adjacente à articulação temporomandibular.

No pós-operatório imediato já apresentava redução do trismo, embora tenha evoluído com paresia dos ramos oftálmico e bucinador do nervo facial, esperados em função da extensa manipulação cirúrgica, até sobre a musculatura da mímica facial.

O exame anatomopatológico identificou fragmentos de tecido ósseo compacto em meio a fibrina e hemorragia com fibroplasia e infiltrado inflamatório misto em tecidos



**Figura 2** Exame de tomografia computadorizada, janela óssea. Identificação de três lesões ósseas e fragmentos metálicos.



**Figura 3** Lesão óssea esbranquiçada associada a processo inflamatório adjacente.

periosteais, sem sinais de malignidade. Os achados foram compatíveis com miosite ossificante.

Passados dois meses da operação, evoluiu com um processo infeccioso nos tecidos moles da hemiface esquerda, por provável contaminação via seio maxilar, com melhora após antibioticoterapia. O paciente tem feito fonoterapia há um ano, desde a operação, com redução substancial do trismo e recuperação parcial da função neural.

## Discussão

Descrevemos o caso de um portador de miosite ossificante circunscrita ou miosite ossificante traumática, diferente do

tipo progressivo – uma condição genética, rara e incurável. A primeira, por sua vez, pode ser traumática ou, menos frequente, não associada a traumas.

O traumatismo associado pode ser perfurante ou fechado, queimaduras, infecções, fraturas, traumas neurológicos, entre outros.<sup>2</sup> É pouco habitual em face e relatos descreveram o envolvimento dos músculos da mastigação, como o masseter, bucinador, pterigoide e temporal. No que diz respeito à sua etiologia nesses músculos, as causas mais comuns descritas são extração dentária, infiltração de anestésico local, abscesso odontogênico migratório, uso de colar cervical, genioplastia, tratamento ortodôntico complexo, força direta e fraturas do esqueleto facial.<sup>3</sup>

Os sintomas incluem aumento de volume e temperatura, eritema, dor, parestesia e mobilidade local restrita quando a área afetada está associada a uma articulação.<sup>2</sup> Quando ocorre na área da face, os músculos mastigatórios são mais frequentemente acometidos, como observado nos relatos de casos, e o achado clínico mais prevalente é uma limitação progressiva do movimento na mandíbula (trismo).<sup>4,5</sup>

Jiang et al.<sup>4</sup> levantaram a hipótese de que a infecção e o trauma têm papéis igualmente importantes na patogenia da miosite ossificante nos músculos mastigatórios. No presente caso, o paciente apresentou uma celulite facial aguda, com possível relação com a descontinuidade da parede anterior do seio maxilar e consequente infecção local. No entanto, nos últimos 30 anos, ele nunca havia relatado eventos sinusais. Por sua vez, os sinais inflamatórios desenvolveram-se após o trismo e a dificuldade para ajustar a prótese dentária parcial, não se podendo associar o processo inflamatório agudo às formações ósseas. Como mencionado, os sinais inflamatórios também são parte do quadro clínico, especialmente se houver envolvimento articular. A operação reconstrutiva após o trauma também seria um ponto a ser considerado à etiologia do processo descrito, embora a intensidade do trauma inicial nos pareça mais pertinente.

A maioria dos casos de miosite ossificante circunscrita é autolimitada e as lesões tendem a regredir espontaneamente.<sup>6</sup> Acredita-se que o seu desenvolvimento seja desencadeado por necrose do tecido ou hemorragia seguida por processo reparativo fibroblástico e vascular intenso com ossificação sequencial.<sup>7</sup> De início, a lesão ricamente vascularizada é predominantemente composta por fibroblastos com alta atividade mitótica. Ao longo de três a seis semanas, a formação óssea já se faz evidente na periferia da lesão, como osso cortical, organizado com córtex e espaço medular. Sua maturidade deve ser alcançada após cinco ou seis meses, quando pode começar a regredir.<sup>6</sup>

A tomografia computadorizada é o exame de imagem de escolha para o diagnóstico dessa entidade. A ressonância magnética é um recurso mais sensível para a identificação de lesões pequenas e iniciais, embora menos específico.<sup>7,8</sup> Em uma lesão madura, a tomografia mostra uma zona de maturação óssea periférica com um centro radiolucido.<sup>7</sup> Outra zona radiolucida geralmente separa a lesão óssea dos tecidos adjacentes, o que pode auxiliar no diagnóstico diferencial com neoplasias malignas invasivas.<sup>6</sup>

Seu diagnóstico diferencial inicial inclui processos inflamatórios e/ou infecciosos, tais como trombose, celulite e osteomielite.<sup>2</sup> Neoplasias também são consideradas no diagnóstico diferencial, como sarcoma sinovial, sarcoma

dos tecidos moles, osteocondroma, osteossarcoma, rabdomiossarcoma<sup>8</sup> e doença metastática.<sup>7</sup>

Estabelecida a indicação para a ressecção cirúrgica das lesões devido a sintomas e limitações na abertura bucal, não indicamos biópsia. Já contávamos também com a suspeita imagenológica de miosite ossificante. No entanto, alguns autores<sup>8</sup> recomendam biópsias, especialmente quando se opta pela observação clínica ou não há uma precisão diagnóstica através da clínica e dos métodos de imagem disponíveis. Lembramos que a punção ou biópsia da porção central da lesão, normalmente muito celular, pode levar à confusão diagnóstica, priorizando-se a biópsia da periferia da estrutura,<sup>6</sup> embora seu componente ósseo possa dificultar a aspiração com agulha fina, método de escolha para biópsias na região da face e do pescoço. Nem a biópsia por aspiração nem o exame de congelação geralmente fornecem um diagnóstico definitivo.<sup>6</sup>

Ressecção cirúrgica<sup>7,9,10</sup> e tratamento conservador<sup>2,8</sup> são preconizados. O último é baseado na possibilidade de regressão espontânea da lesão, em que observação clínica, repouso, gelo e fisioterapia são recomendados. Alguns recomendam a administração de medicamentos anti-inflamatórios e até mesmo pequenas doses de radioterapia externa,<sup>2</sup> mas não promovemos esse curso de ação. À indicação da ressecção operatória, acredita-se que essa deva ser feita após a maturação da lesão, evitam-se eventuais recidivas.<sup>2,9</sup> A excisão cirúrgica precoce é indicada, por sua vez, quando a lesão está associada a uma articulação, o que poderia levar à anquilose.<sup>2</sup> A incerteza de diagnóstico na presença de lesões sintomáticas ou de crescimento rápido é apropriada para a ressecção no momento da manifestação. A maioria dos relatos consultados teve seus pacientes operados, como fizemos, devido a sintomas relacionados, principalmente dor e trismo. A recorrência após o tratamento cirúrgico completo não é uma condição frequente, embora os relatos sejam limitados em relação ao acompanhamento desses casos.

Dois aspectos nos atentaram para esse caso. Inicialmente, o desenvolvimento das lesões passados mais de 30 anos do ferimento é pouco habitual, uma vez que a miosite ossificante caracteriza-se por seu desenvolvimento a partir de semanas do trauma. Por sua vez, há um relato de miosite ossificante em músculo temporal 25 anos após um traumatismo grave<sup>9</sup> e outro relato de caso que relacionou um golpe no lado esquerdo da face de uma mulher jovem “vários anos” antes dos sintomas.<sup>5</sup> Mashiko et al.<sup>10</sup> também relataram o caso de um homem que sofreu repetidos abusos físicos nos últimos 15 anos e que poderiam estar relacionados ao desenvolvimento de miosite ossificante nos músculos masseteres. O segundo aspecto é a presença de três lesões, em vez de uma única, conforme relatado na maioria dos casos descritos em literatura especializada. Nos últimos 15 anos, por sua vez, três relatos descreveram casos de lesões bilaterais.<sup>8</sup>

## Conclusão

Nos últimos três anos verificou-se na literatura um aumento interessante dos relatos de miosite ossificante na região de cabeça e pescoço. Mesmo assim, é uma situação pouco frequente e os médicos devem permanecer alertas a



ela, bem como aos possíveis diagnósticos diferenciais, como sarcomas, para garantir o tratamento e o acompanhamento adequados. Há poucos relatos de casos semelhantes em músculos da face que se desenvolveram anos após o trauma. Há também alguns relatos de lesões múltiplas. Também se deve dar atenção à história clínica do paciente, à procura de qualquer possível trauma local.

### Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

### Referências

1. Frassica FJ, Thompson RC. Evaluation, diagnosis, and classification of benign soft-tissue tumors. *J Bone Joint Surg Am.* 1996;78:126–40.
2. Shin SJ, Kang SS. Myositis ossificans of the elbow after trigger point injection. *Clin Orthop Surg.* 2011;3:81–5.
3. Ungari C, Filiaci F, Riccardi E, Rinna C, Iannetti G. Etiology and incidence of zygomatic fracture: a retrospective study related to a series of 642 patients. *Eur Rev Med Pharmacol Sci.* 2012;16:1559–62.
4. Jiang Q, Chen MJ, Yang C, Qiu YT, Tian Z, Zhang ZY, et al. Post-infectious myositis ossificans in medial, lateral pterygoid muscles: a case report and review of the literature. *Oncol Lett.* 2015;9:920–6.
5. Boffano P, Zavattero E, Bosco G, Berrone S. Myositis ossificans of the left pterygoid muscle: case report and review of the literature of myositis ossificans of masticatory muscles. *Cranio-maxillofac Trauma Reconstr.* 2014;7:43–50.
6. Lello GE, Makek M. Traumatic myositis ossificans in masticatory muscles. *J Maxillofac Surg.* 1986;14:231–7.
7. Trautmann F, Moura P, Fernandes TL, Gondak RO, Castilho JCM, Medici Filho E. Myositis ossificans traumatic of the medial pterygoid muscle: a case report. *J Oral Sci.* 2010;52:485–9.
8. Kruse AL, Dannemann C, Grätz KW. Bilateral myositis ossificans of the masseter muscle after chemoradiotherapy and critical illness neuropathy – report of a rare entity and review of literature. *Head Neck Oncol.* 2009;1:30.
9. Manzano D, Silván A, Saez J, Moreno JC. Myositis ossificans of the temporalis muscle. Case report. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal.* 2007;12:E277–80.
10. Mashiko T, Akizuki T, Watanabe Y, Sasaki R, Yokoyama M, Yoshimura K, et al. Clinicopathologic assessment of myositis ossificans circumscripta of the masseter muscles. *J Craniofac Surg.* 2015;26:2025–6.