



**Ministério da Saúde
Instituto Nacional de Câncer
Coordenação de Ensino
Programa de Residência Médica em Cirurgia Torácica**

JEANNIE DELGADO OLIVEIRA MARINHO

**RESSECÇÃO PULMONAR DE ADAMANTINOMA METASTÁTICO:
RELATO DE CASO**

Rio de Janeiro

2025

JEANNIE DELGADO OLIVEIRA MARINHO

**RESSECÇÃO PULMONAR DE ADAMANTINOMA METASTÁTICO:
RELATO DE CASO**

Trabalho de Conclusão de Curso
apresentado ao Instituto Nacional de
Câncer como requisito parcial para a
conclusão do Programa de Residência
Médica em Cirurgia Torácica

Orientador: Dr. Aureliano Mota Cavalcanti de Sousa

Revisão: Prof^a Dr^a Shirley Burburan

Rio de Janeiro

2025

CATALOGAÇÃO NA FONTE
INCA/COENS/SEITEC/NSIB
Kátia Simões CRB 7/ 5952

M338r Marinho, Jeannie Delgado Oliveira

Ressecção pulmonar de adamantinoma metastático: relato de caso. / Jeannie Delgado Oliveira Marinho. – Rio de Janeiro, 2025.
17 f. il, color.

Trabalho de Conclusão de Curso (Residência Médica) – Instituto Nacional de Câncer, Programa de Residência Médica em Cirurgia Torácica, Rio de Janeiro, 2025.

Orientadora: Prof. Dr. Aureliano Mota Cavalcanti de Sousa.
Revisão: Profª. Drª. Shirley Burburan.

1. adamantinoma. 2. metástase pulmonar. 3. metastasectomia. I. Sousa, Aureliano Mota Cavalcanti de (Orient.). II. Burburan, Shirley (Rev.). III. Instituto Nacional de Câncer. IV. Título.

CDD 616.994 71

JEANNIE DELGADO OLIVEIRA MARINHO

Ressecção pulmonar de adamantinoma metastático: relato de caso

Trabalho de Conclusão de Curso
apresentado ao Instituto Nacional de
Câncer como requisito parcial para a
conclusão do Programa de Residência
Médica em Cirurgia Torácica

Aprovado em: 31 de agosto de 2025.

Examinadores:

Dr. Aureliano Sousa
Chefe da Seção de Tórax
Hospital do Câncer I - INCA
CRM: 52.514223

Aureliano Mota Cavalcanti de Sousa

Dr. Gustavo Gattás
Cirurgião Torácico
Endoscopia Respiratória
CRM RJ 52.100512-0

Gustavo Santiago Melhim Gattás

GUSTAVO S. de M. Pierro
Médico
CRM: 52.87518-0

Gustavo Soares de Moura Pierro

GUSTAVO S. de M. Pierro
Médico
CRM: 52.87518-0

Rio de Janeiro

2025

AGRADECIMENTOS

Agradeço primeiramente a Deus pelas oportunidades que tive durante todo o período da residência médica no INCA. Oportunidade de crescer como profissional e como pessoa.

Agradeço aos meus professores Dr. Aureliano Mota, Dr. Gustavo Gattás, Dra. Andreia Monteiro, Dr. Gustavo Pierro, Dra. Márcia Carreira, Dr. Guilherme Dal Agnol e Dr. Emanuel Bastos pelos ensinamentos dentro e fora da especialidade.

Agradeço a minha família que sempre me apoiou incondicionalmente e acreditam em mim. Meu pai Wagner Marinho, minha mãe Letícia Marinho e minha irmã Natasha Marinho. Agradeço também ao Ian Nobre que esteve ao meu lado com todo seu amor e de prontidão esteve me apoiando nos momentos difíceis.

Aos meus amigos e colegas de profissão que fizeram o caminho mais prazeroso e leve. Aos funcionários do Hospital do Câncer I, em especial, Rosemeire, Renan, Solange e Andreia, que sempre me ajudaram em tudo que precisei e que me fizeram sentir em casa.

Aos pacientes que entregaram sua confiança em nossas mãos e com os quais pude aprender técnica e emocionalmente.

RESUMO

MARINHO, Jeannie Delgado Oliveira. **Ressecção pulmonar de adamantinoma metastático:** relato de caso. Trabalho de Conclusão de Curso (Residência Médica em Cirurgia Torácica) — Instituto Nacional de Câncer (INCA), Rio de Janeiro, 2025.

O adamantinoma é um tumor raro, com baixo potencial de malignidade caracterizado por células de origem epitelial. É um tumor de crescimento lento e a incidência de metástase é baixa. O principal sintoma relatado pelos pacientes é a dor e a fratura patológica pode estar presente. O início é insidioso e lento, mas de natureza progressiva. O objetivo deste trabalho é apresentar o caso clínico um paciente com metástase pulmonar única de adamantinoma tratado no Instituto Nacional Nacional de Câncer. O caso apresentado se trata de um adamantinoma primário de úmero com metástase pulmonar que foi tratado cirurgicamente com ressecção do lobo pulmonar superior direito, tendo margens cirúrgicas e linfonodos ressecados livres de neoplasia. O tratamento preconizado pela literatura é predominantemente cirúrgico, ou seja, metastasectomia, podendo ou não ser complementado com quimioterapia. A sobrevida dos casos de adamantinoma metastatico é baixa e a resposta à quimioterapia geralmente não é favorável.

Palavras-chave: adamantinoma; metástase pulmonar; metastasectomia.

ABSTRACT

MARINHO, Jeannie Delgado Oliveira. **Lung resection of metastatic adamantinoma:** case report. Final paper (Medical Residency in Thoracic Surgery) — Brazilian National Cancer Institute (INCA), Rio de Janeiro, 2025.

Adamantinoma is a rare tumor with low malignant potential characterized by cells of epithelial origin. It is a slow-growing tumor and the incidence of metastasis is low. The main symptom reported by patients is pain and pathological fracture may be present. The onset is insidious and slow, but progressive in nature. The objective of this work is to present the clinical case of a patient with a single lung metastasis from adamantinoma treated at the Brazilian National Cancer Institute. The case presented is a primary adamantinoma of the humerus with pulmonary metastasis that was treated surgically with resection of the right upper lung lobe, with surgical margins and resected lymph nodes free of neoplasia. The treatment recommended in the literature is predominantly surgical, that is, metastasectomy, which may or may not be complemented with chemotherapy. Survival in cases of metastatic adamantinoma is low and the response to chemotherapy is generally not favorable.

Keywords: adamantinoma; lung metastasis; metastasectomy.

SUMÁRIO

1	INTRODUÇÃO.....	1
2	MÉTODOLOGIA.....	2
3	CASO CLÍNICO.....	3
4	DISCUSSÃO.....	4
5	CONCLUSÃO.....	6
	REFERÊNCIAS	7

1 INTRODUÇÃO

O adamantinoma é um tumor com baixo potencial de malignidade, caracterizado por aglomerados de células epiteliais circundados por componente osteofibroso fusiforme relativamente brando [1]. Apresenta um tipo histológico bastante raro de tumor de crescimento lento, e é caracterizado por uma baixa frequência de metástases.

É um tumor de baixa incidência (ocorre em menos de 0,5% de todos os tumores esqueléticos primários); em termos de idade, desenvolve-se mais frequentemente entre os 20 e os 50 anos, sendo mais comum nos homens [1]. O principal sintoma relatado pelos pacientes é a dor e a fratura patológica pode estar presente [2]. O início é insidioso e lento, mas de natureza progressiva. Manifestações paraneoplásicas, como hipercalcemia, têm sido associadas ao adamantinoma de tibia com metástase pulmonar [3].

O caso apresentado se trata de um adamantinoma primário de úmero com metástase pulmonar que foi tratado cirurgicamente com ressecção do lobo pulmonar superior direito, tendo margens cirúrgicas e linfonodos ressecados livres de neoplasia. O tratamento preconizado pela literatura é predominantemente cirúrgico, ou seja, metastasectomia, podendo ou não ser complementado com quimioterapia. A sobrevida dos casos de adamantinoma metastático é baixa e a resposta a quimioterapia geralmente não é favorável.

O objetivo deste trabalho é apresentar o caso clínico um paciente com metástase pulmonar única de adamantinoma de úmero direito tratado no Hospital do Câncer I do Instituto Nacional do Câncer pela equipe de Cirurgia Torácica e Oncologia Clínica.

2 MÉTODOLOGIA

Este é um estudo descritivo e retrospectivo do tipo relato de caso de um paciente proveniente do Instituto Nacional de Traumatologia e Ortopedia (INTO) para o Instituto Nacional do Câncer (INCA), no Rio de Janeiro, Brasil, em agosto de 2020, para avaliação de lesão pulmonar em lobo superior direito.

O paciente assinou o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido. Os instrumentos de coleta de dados foram prontuário físico e eletrônico do paciente incluindo laudos de exames de imagem, laudo anatomo-patológico, evolução clínica, descrição cirúrgica, dentre outras informações. A confidencialidade dos dados do paciente foi observada e o estudo foi devidamente submetido e aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa do INCA (CAAE: 91454725.0.0000.5274; nº do parecer: 7.792.284).

Além disso, foi realizada uma revisão bibliográfica descritiva por meio de artigos documentados nas bases de dados Lilacs, PubMed, Scielo e UptoDate, versando sobre os atuais manejos clínicos e cirúrgicos do adamantinoma metastático.

3 CASO CLÍNICO

FAA, 60 anos, masculino, sem comorbidades prévias, não-tabagista, foi submetido à ressecção de sarcoma de alto grau, adamantinoma, em úmero direito em 2018 e reoperado devido recidiva local em 2020. Na Tomografia Computadorizada (TC) de tórax de controle pós-operatório de março de 2020 notou-se surgimento de lesão pulmonar de cerca de 17 mm lobo superior direito (LSD), quando foi encaminhado para avaliação no INCA.

Após discussão multidisciplinar, com TC de tórax atualizada, demonstrando crescimento da lesão para 3,3 cm, optou-se por abordagem cirúrgica imediata. Risco cirúrgico e prova de função respiratória permissivos para lobectomia. A cirurgia de metastasectomia pulmonar por vídeo foi realizada em janeiro de 2021, com paciente submetido à anestesia geral, posicionado em decúbito lateral esquerdo. Realizada incisão em 5º EIC direito, linha axilar média anterior, com passagem de protetor de incisão e incisão no 8º EIC para inserção de ótica para videotoracoscopia; LSD livre de aderências ou qualquer evidência macroscópica de invasão tumoral. Realizada lobectomia superior direita e linfadenectomia das cadeias 2, 4, 7, 10 e 11.

O procedimento ocorreu sem intercorrências. Realizada cirurgia R0. O paciente foi extubado na sala de operação e encaminhado à sala de recuperação pós-anestésica. Apresentou boa evolução pós-operatória; deambulando e alimentando-se no 1º dia pós-operatório. Dreno de tórax retirado no 3º dia de pós-operatório. O paciente retornou no ambulatório de cirurgia torácica após 16 dias de cirurgia sem queixas respiratórias. O laudo histopatológico definitivo da lesão foi de metástase de adamantinoma, linfonodos livres de neoplasia. O paciente mantém acompanhamento pós-operatório ambulatorialmente até a presente data.

4 DISCUSSÃO

O adamantinoma é um tumor raro, com baixo potencial de malignidade caracterizado por células de origem epitelial, crescimento lento e baixa incidência de metástases [1]. Na radiografia simples, geralmente se apresenta como uma lesão lítica lobular excêntrica e às vezes central, com margens escleróticas de radiotransparência sobreposta, com delineamento baixo ou nítido, nos dois terços distais da diáfise ou metáfise de um longo osso [4].

A Tomografia computadorizada mostra com mais precisão a formação osteolítica, o envolvimento do córtex e a extensão do tumor para os tecidos moles adjacentes e revelar metástases pulmonares, sem detectar a extensão intraóssea do tumor [5]. Como parte do estadiamento, a cintilografia óssea de corpo inteiro deve ser realizada em busca de detecção intensa do radiofármaco para identificar possíveis metástases.

No passado, o tratamento de escolha era a amputação; entretanto, com o progresso da medicina, novas técnicas cirúrgicas são utilizadas atualmente para reconstruções após ressecção em bloco da lesão [6].

Apenas 10-15% dos adamantinomas são complicados com doença metastática [4]. A metástase à distância se desenvolve muitos anos após a primeira apresentação. Os sítios metastáticos usuais são pulmões, linfonodos, fígado, outros ossos e pericárdio, enquanto a recorrência local não é incomum [7].

Os fatores de risco para recorrência ou metástase são história médica relatando sintomas de menos de 5 anos, sexo masculino, idade jovem, dor na apresentação, falta de diferenciação escamosa e aumento da relação epitélio-estroma [8].

Foi relatado que o adamantinoma metastático é resistente à quimioterapia. O teste imuno-histoquímico de VEGFR, PDGFR, c-kit (CD117) e EGFR é fundamental nesta doença. A expressão desses receptores no componente epitelial do tumor provou predizer uma boa resposta e pode prolongar a sobrevida [3].

Quando o adamantinoma metastatiza, o prognóstico é ruim, embora os inibidores de multiquinase, como o sunitinibe, possam prolongar a sobrevida [3]. É importante adotar um acompanhamento de longo prazo, pois o diagnóstico precoce é essencial para o tratamento e prognóstico de recorrência e metástases [9].

A ressecção de todas as metástases deve ser tentada a todo custo, e a ressecção em cunha deve ser realizada. Por se tratar de um tumor de crescimento

lento, existe um efeito benéfico potencial no uso paliativo da metastasectomia parcial, principalmente nos casos de metástases mais centrais. Esse procedimento pode retardar complicações como atelectasias obstrutivas ou hemoptises e, embora deva ser usado apenas em casos excepcionais, recomendamos seu uso para o tratamento de casos em que não há alternativa terapêutica à cirurgia, como o caso aqui relatado [10, 11].

O adamantinoma primário é resistente à radioterapia e quimioterapia. Em adamantinomas metastáticos de pulmão, a resposta positiva à quimioterapia foi relatada em poucos casos. Cohen e cols.[12] verificaram que a terapia com pazopanibe apresentou bons resultados no adamantinoma metastático pulmonar. Resultados semelhantes também foram relatados por Liman e cols., após terapia com sunitinibe [3, 11].

Em relação ao prognóstico, a literatura aponta que a sobrevida média dos pacientes com doença metastática é de doze anos e que fatores como sexo masculino, intervalo livre de doença (entre o tumor primário e o tumor metastático) inferior a um ano, e apresentação de recidiva local são associados a pior prognóstico [10].

5 CONCLUSÃO

O adamantinoma é um tumor ósseo primário maligno indolente e raro, sendo o tratamento da doença primária cirúrgico. Na configuração metastática existem apenas casos esporádicos, relatando resultados negativos ou positivos com tratamento sistêmico complementando a metastasectomia.

O paciente do presente estudo foi tratado cirurgicamente e segue em acompanhamento com a equipe de cirurgia torácica. Nota-se, porém, que ainda são necessários estudos mais robustos envolvendo metástases pulmonares de amantinoma, por se tratar de uma doença incomum e sobre a qual a literatura é escassa.

REFERÊNCIAS

- [1] VARVAROUSIS, D. N *et al.* "Adamantinoma: An Updated Review." **In vivo**, Athens, Greece, v. 35, n. 6, p. 3045-3052, 2021. doi:10.21873/invivo.12600.
- [2] AYTEKIN, M. N., ÖZTÜRK, R.; AMER, K. Epidemiological Study of Adamantinoma from US Surveillance, Epidemiology, and End Results Program: III Retrospective Analysis. **Journal of Oncology**, Cairo, Egypt, v. 2020, p. 2809647, 16 Jun. 2020. doi:10.1155/2020/28096471-8.
- [3] LIMAN, A. D. *et al.* A case of metastatic adamantinoma that responded well to sunitinib. **Case Reports in Oncological Medicine**, New York, USA, v. 2016, p.5982313, 2016.
- [4] JAIN, D. *et al.* Adamantinoma: A clinicopathological review and update. **Diagnostic Pathology**, London, England, v. 3, n. 1, p. 8, 2008.
- [5] CHELLI BOUAZIZ, M. *et al.* Adamantinoma of the tibia: a clinicoradiologic study of four cases. **European Journal of Orthopaedic Surgery & Traumatology**, Paris, France, v. 19, n. 6, p. 427–432, 2009.
- [6] HOODEK, M. T. *et al.* Adamantinoma of bone: Long-term follow-up of 46 consecutive patients. **Journal of Surgical Oncology**; New York, USA, v. 118, n. 7, n. 1150-1154, 2018.
- [7] GONÇALVES, R. *et al.* Caso raro de pneumotórax: adamantinoma metastático. **Jornal Brasileiro de Pneumologia**, Brasília, DF, Brasil, v. 34, n. 6, p. 425–429, 2008.
- [8] JUNDT, G., REMBERGER, K., ROESSNER, A., SCHULZ, A., & BOHDENDORF, K. Adamantinoma of Long Bones. **Pathology - Research and Practice**, Stuttgart, Germany, v. 191, n. 2, p. 112–120, 1995.
- [9] DENG, Z. *et al.* Outcome of osteofibrous dysplasia-like versus classic adamantinoma of long bones: a single-institution experience. **Journal of Orthopaedic Surgery and Research**, London, England, v. 15, n. 1, p. 268, 2020.
- [10] FILIPPOU, D.K. *et al.* Adamantinoma of tibia: a case of late local recurrence along with lung metastases. **J Postgrad Med**, Bombay, India, v. 49, n. 1, p.75-7, 2003.
- [11] QURESHI, A. A. *et al.* Tendências atuais no manejo do adamantinoma de ossos longos. Um estudo internacional. **J Bone Joint Surg Am**, Boston, MA, USA, v. 82, n. 8, p. 1122-31, 2000.
- [12] COHEN, J. *et al.* A case of metastatic adamantinoma responding to treatment with pazopanib. **Acta Oncologica**, Stockholm, Sweden, v. 52, n. 6, p. 1229-1230, 2013.

Adélie Nicolli Martins Gai Costa¹, Aureliano Mota Cavalcanti de Sousa²
 Guilherme Dal Agnol², Jeannie Delgado Oliveira Marinho¹

¹Médicas Residentes em Cirurgia Torácica do INCA; ²Cirurgiões Preceptores do Programa de Cirurgia Torácica e Cirurgia Oncológica do INCA

INTRODUÇÃO

Relato de caso de um homem de 60 anos proveniente do Instituto Nacional de Traumatologia e Ortopedia (INTO) para o Instituto Nacional do Câncer (INCA), no Rio de Janeiro, Brasil, em agosto de 2020 para avaliação de lesão pulmonar em lobo superior direito.

CASO CLÍNICO

FAA, 60 anos, masculino, sem comorbidades prévias, não-tabagista, foi submetido à ressecção de sarcoma de alto grau, Adamantinoma, em membro superior direito em 2018 e 2020, necessitando amputação do membro na última intervenção cirúrgica.

Na TC de tórax de março de 2020 em controle ambulatorial notou-se surgimento de lesão de cerca de 17 mm lobo superior direito (LSD), quando foi encaminhado para avaliação no INCA (Figura 1).

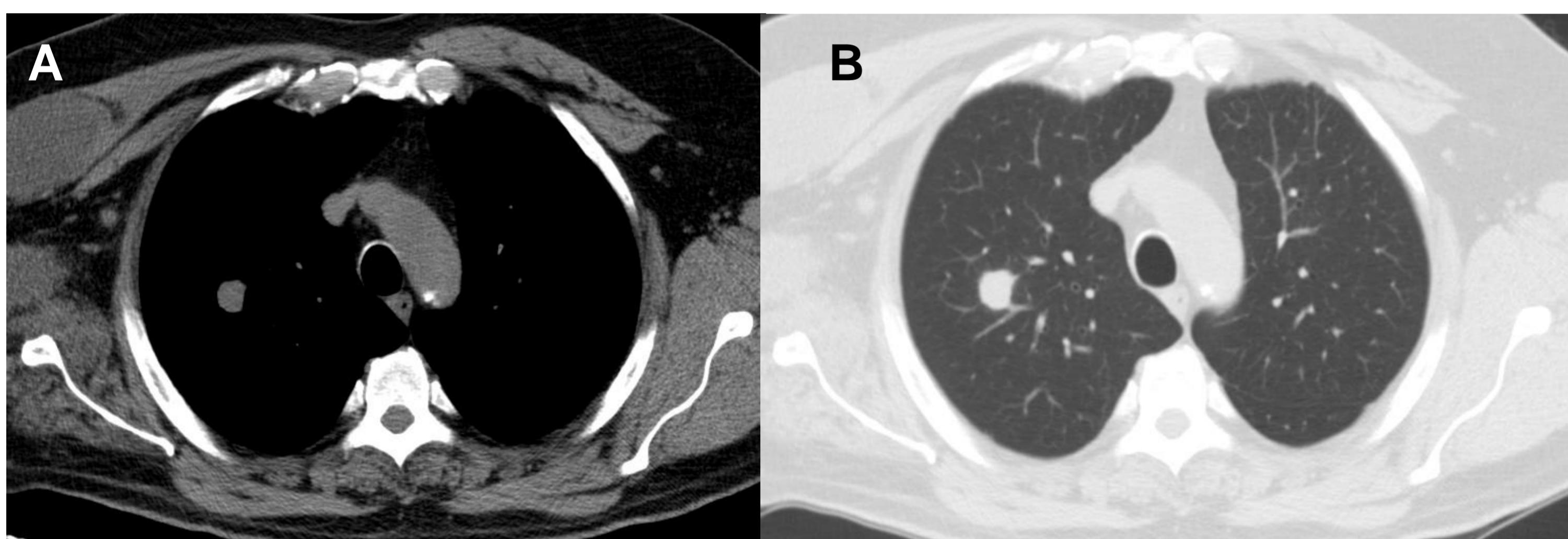


FIGURA 1: TC de tórax mar/2020 A) Janela de Mediastino; B) Janela de Parênquima.

Após discussão multidisciplinar, com TC de tórax de outubro de 2020, demonstrando crescimento da lesão para 3,3 cm (Figura 2 A) e aparecimento de nova lesão de 1,4 cm (Figura 2B), foi optado por abordagem cirúrgica imediata.

Risco cirúrgico e PFR permissivos para lobectomia.

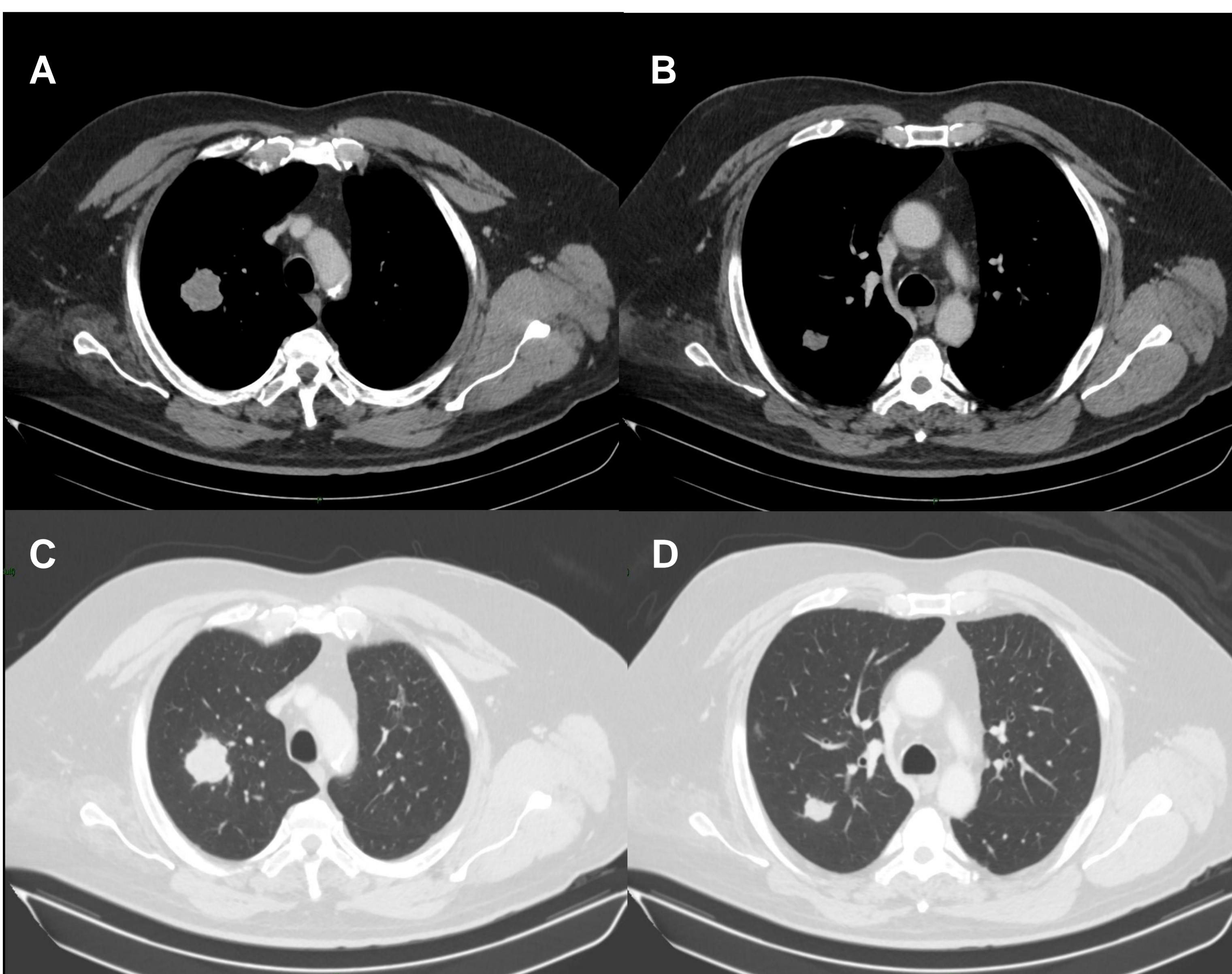


FIGURA 2: TC de tórax out/2020 A e C) Nódulo de 3,3cm; B e D) Nódulo de 1,4cm.

A cirurgia de exérese da lesão foi realizada em janeiro de 2021 por videotoracoscopia - paciente sob anestesia geral, posição em decúbito lateral esquerdo. Realizada incisão em 5º EIC direito, linha axilar média anterior, colocação de protetor de incisão e incisão no 8º EIC para inserção de ótica para videotoracoscopia, onde visualizamos o lobo superior direito (LSD) livre de aderências ou qualquer evidência macroscópica de invasão tumoral. Realizada lobectomia superior direita e linfadenectomia das cadeias 10R, 11R e 7. Procedimento sem intercorrências. Realizada cirurgia R0. Peça cirúrgica (Figura 3). Laudo da congelação:



FIGURA 3: A) Peça cirúrgica íntegra; B) Peça cirúrgica com corte transversal.

O paciente teve boa evolução pós-operatória com deambulação no 1º dia pós-operatório. Dreno retirado no 3º dia de pós-operatório. O laudo histopatológico definitivo da lesão intrapulmonar foi de metástase de adamantinoma. Medida: 3,3 e 1,7 cm nos maiores eixos. Parênquima adjacente sem particularidades. Limites livres de neoplasia.

DISCUSSÃO

O Adamantinoma de ossos longos acomete preferencialmente a tibia (70%), a fíbula, o fêmur e a ulna, podendo acometer também o úmero ou as costelas, histologicamente semelhante ao ameloblastoma de mandíbula. Apresenta-se geralmente como um tumor único situado na diáfise óssea.

As metástases pulmonares mostram-se extremamente semelhantes aos tumores primários e têm como diagnóstico diferencial a displasia osteofibrosa. A ocorrência de doença metastática é rara (10-15%) e, quando se dá, é de forma tardia, podendo acontecer até dez anos após a detecção do tumor primário.

O tratamento do tumor primário se faz por ressecção local ampliada com margens livres. Trata-se de uma neoplasia altamente radioresistente, e não há, no momento, quimioterapia eficaz no controle do tumor.

REFERÊNCIAS

- De Keyser F, Vansteenkiste J, Van Den Brande P, Demedts M, Van de Woestijne KP. Pulmonary metastases of a tibia adamantinoma. Case report and review of the literature. *Acta Clin Belg*. 1990;45(1):31-3.
 Gonçalves R, Saad Júnior R, Dorgan Neto V, Botter M. A rare case of pneumothorax: metastatic adamantinoma. *J Bras Pneumol*. 2008;34(6):425-429.
 Van Schoor JX, Vallaeys JH, Joos GF, Roels HJ, Pauwels RA, Van Der Straeten ME. Adamantinoma of the tibia with pulmonary metastases and hypercalcemia. *Chest*. 1991;100(1):279-81.
 Pastorino U. History of the surgical management of pulmonary metastases and development of the International Registry. *Semin Thorac Cardiovasc Surg*. 2002;14(1):18-28.
 Rusch VW. Metastatic Neoplasms to the Lung: Introduction. *Seminars in Thoracic and Cardiovascular Surgery*. 2002;14:2-3.



CERTIFICADO

Certificamos que

ADÉLIE NICOLLI MARTINS GAI COSTA, AURELIANO MOTA CAVALCANTI DE SOUSA, GUILHERME DAL AGNOL, JEANNIE DELGADO OLIVEIRA MARINHO

apresentaram o estudo intitulado
RESSECÇÃO PULMONAR DE ADAMANTINOMA METASTÁTICO

como **E-Pôster** durante o XXII Congresso da Sociedade Brasileira de Cirurgia Torácica, realizado no formato online, entre os dias 13 e 15 de maio de 2021.

SÉRGIO TADEU LIMA F. PEREIRA
PRESIDENTE SBCT



ORGANIZAÇÃO

FÁBIO MAY DA SILVA
PRESIDENTE DO CONGRESSO TÓRAX 2021