

Fibromatosis Gingival Idiopática Unilateral: Reporte de un Caso con Cuatro Años de Seguimiento

Unilateral Idiopathic Gingival Fibromatosis: Case Report With Four-Year Follow-Up

Alicia I. Wierna^{*}; Ana M. Ansonnaud^{**}; Silvia N. Carino^{***}; Analía G. Soria^{****};
Mauricio González Mac Donald^{*} & Alejandro Dip^{*****}

WIERNA, A. I.; ANSONNAUD, A. M.; CARINO, S. N.; SORIA, A. G.; GONZÁLEZ, M. M. & DIP, A. Fibromatosis gingival idiopática unilateral: Reporte de un caso con cuatro años de seguimiento. *Int. J. Odontostomat.*, 9(1):19-24, 2015.

RESUMEN: La fibromatosis gingival es una enfermedad rara que se caracteriza por aumento del tejido gingival por proliferación fibrosa, es de crecimiento lento, cubriendo en algunos casos la totalidad de los dientes comprometidos. Esta nosología comprende un grupo heterogéneo de patologías de causas no determinadas. El objetivo de este trabajo es presentar un caso clínico de una paciente de 13 años con FGI Unilateral, su diagnóstico, tratamiento y seguimiento durante cuatro años. Presenta al examen clínico intraoral, agrandamiento anormal de su encía tanto superior como inferior, afectando solamente los hemiarcos del sector izquierdo. A la palpación es indolora y de consistencia fibrosa. No se encontraron factores locales que justifiquen dicho aumento. El examen físico elimina la posibilidad de otras patologías asociadas, no refiriendo recibir medicaciones inmunosupresivas, antiepilépticos o antihipertensivos. No tiene antecedentes familiares. La paciente fue sometida a extirpación quirúrgica del tejido hiperplasiado y el material obtenido enviado a estudio histopatológico. Después del tratamiento quirúrgico y una buena higiene oral con exámenes de control efectuados durante cuatro años no se observó recurrencia. A pesar de ser una patología poco frecuente el odontólogo debe conocer la fisiopatología y comprender que el manejo de ésta enfermedad es a través de un equipo multidisciplinario. El diagnóstico precoz y el tratamiento oportuno logran la recuperación psicológica, estética y funcional de los pacientes.

PALABRAS CLAVE: fibromatosis gingival idiopática, diagnóstico diferencial.

INTRODUCCIÓN

La fibromatosis gingival (FG) es una enfermedad rara que se caracteriza por aumento del tejido gingival por proliferación fibrosa, de crecimiento lento, que cubre en algunos casos la totalidad de los dientes comprometidos (Cekmez *et al.*, 2009; Bayar *et al.*, 2011). La prevalencia es 1 en 175.000 y son igualmente afectados ambos sexos (Kather *et al.*, 2008). La fibromatosis gingival idiopática (FGI), comprende un grupo heterogéneo de patologías de causas no determinadas. La FGI es sinónimo de nomenclaturas tales como hiperplasia gingival, elefantiasis gingival, fibromatosis gingival hereditaria, fibroma difuso, gigantismo de la

gingiva, fibromatosis familiar congénita (Newman *et al.*, 2002). Puede ser una afección congénita o adquirida. En el primer caso el componente hereditario dominante autosómico es el más frecuente, aunque existen casos reportados con un componente recesivo, pudiendo presentarse en forma aislada o como parte de un síndrome. Las formas dominante autosómicas no están asociadas generalmente a síndromes y están genéticamente relacionadas con mutaciones del cromosoma 2 en el sector 2p21-p222 y en el 5q (5q13-q22) (Xiao *et al.*, 2001; Jaju *et al.*, 2009). Las adquiridas pueden estar relacionadas con: procesos inflamatorios

- ^{*} Jefe de Trabajos Prácticos. Cátedra de Semiología y Clínica Estomatológica. Facultad de Odontología. Universidad Nacional de Tucumán, San Miguel de Tucumán, Argentina.
- ^{**} Profesora Adjunta. Cátedra de Semiología y Clínica Estomatológica. Facultad de Odontología. Universidad Nacional de Tucumán, San Miguel de Tucumán, Argentina.
- ^{***} Especialista en Anatomía Patológica Bucal. Profesora Adjunta. Laboratorio de Anatomía Patológica. Facultad de Odontología. Universidad Nacional de Tucumán, San Miguel de Tucumán, Argentina.
- ^{****} Doctora de la Universidad de Buenos Aires. Cátedra de Patología Molecular. Facultad de Bioquímica. Universidad Nacional de Tucumán, San Miguel de Tucumán, Argentina.
- ^{*****} Jefe de Trabajos Prácticos. Cátedra de Anatomía Normal y Dentaria. Facultad de Odontología. Universidad Nacional de Tucumán, San Miguel de Tucumán, Argentina.

(placa bacteriana, sarro), medicación (dilantina, fenitoína, ciclosporina A, etc.) y alteraciones sistémicas, como la diabetes no controlada, leucemia, trombocitopenia, cambios hormonales durante la pubertad, etc. (Livada & Shiloah, 2012). Algunos casos, de FGI pueden asociarse a hipertricosis, y/o retardo mental o epilepsia, y/o ser parte de síndromes como el de Rutherford, Cross, Ramon, Zimmermann-Laband, Prune-Belly, Jones, Klipper (Cekmez *et al.*). Clínicamente aparece durante la erupción de la dentición permanente, raramente se presenta en el recién nacido por lo que puede relacionarse al trauma ocasionado sobre los tejidos gingivales (Kavvadia *et al.*, 2005). La FGI puede cubrir en algunos casos la totalidad de los dientes comprometidos, produciendo dificultades estéticas y funcionales como diastemas, mal posición dentaria, erupción retardada, mordidas cruzadas y/o abiertas, retención de la dentición primaria entre otras (Breen *et al.*, 2009). El tejido gingival hiperplásico usualmente presenta color normal o con un tono rosa pálido, a la palpación es de consistencia firme fibroso, no hemorrágico, con abundante puntillado y es completamente indoloro. La lesión se localiza en el margen vestibular y lingual de las encías y en las papilas interdentes, cuando progresa puede cubrir las coronas dentarias y dificultar la oclusión (Newman *et al.*; Aghili & Goldani Moghadam, 2013; Bittencourt *et al.*, 2000).

Los hallazgos histológicos no son específicos, la imagen clásica es hiperplasia de las crestas, acantosis e hiperqueratosis. En el corion, se presentan abundantes fibras colágenas y numerosos fibroblastos con escasos vasos sanguíneos (Doufexi *et al.*, 2005). La distribución de las fibras colágenas se observa en todas las direcciones, no se detectan miofibroblastos, sugiriendo que la FGI es el resultado de un aumento de la síntesis de colágeno por los fibroblastos asociada a la heterogeneidad de los hallazgos histológicos (Sakamoto *et al.*, 2002). Como hallazgo inusual se puede encontrar pequeñas partículas calcificadas, metaplasia ósea de tejido conectivo, y depósitos amiloideos, o islotes de epitelio odontogénico (Günhan *et al.*, 1995).

La severidad de la afección define el tipo de tratamiento. Cuando el crecimiento es mínimo, el raspado y alisado radicular es suficiente, se mantiene con una buena higiene oral. Cuando hay un crecimiento excesivo se debe realizar la intervención quirúrgica con gingivectomía y la restauración del contorno gingival fisiológico lo que permite un mejor control de la placa bacteriana, mejorando los resultados a largo plazo (Baptista, 2002). El procedimiento tradicional quirúrgico causa molestias, provoca más hemorragias y tiene pro-

blemas de cooperación del paciente. El procedimiento realizado con láser de diodo es una alternativa de tratamiento seguro y efectivo para la corrección del contorno gingival. Esta técnica es una buena opción para pacientes pediátricos sobre todo, ya que produce menores molestias en el momento operatorio y post-operatorio (Gontiya *et al.*, 2011).

El objetivo de este trabajo es presentar un caso clínico de una paciente con Fibromatosis Gingival Idiopática Unilateral, su diagnóstico, tratamiento y seguimiento durante cuatro años.

CASO CLÍNICO

Se presenta un caso de una paciente, sexo femenino, 13 años de edad, que concurre a la Facultad de Odontología de la Universidad Nacional de Tucumán, Argentina acompañada por su madre, quien refiere un aumento del volumen gingival desde los 10 años y, a pesar de las indicaciones de higiene impartidas, el crecimiento fue lento pero progresivo. No tiene antecedentes familiares, siendo el único caso en la familia. Al examen clínico intraoral se observa agrandamiento gingival superior e inferior por vestibular, palatino y lingual que afecta los hemiarcadas del sector izquierdo (Fig. 1). A la palpación es indolora y de consistencia fibrosa. Los dientes 25, 26, y 27 presentan movilidad grado 1 y hay ligero sangrado al sondaje periodontal. No se encontraron factores locales (sarro, placa bacteriana) que justifiquen dicho aumento. El examen físico elimina la posibilidad de otras patologías asociadas, no refiriendo recibir medicaciones inmunosupresivas, antiepilépticos o antihipertensivos. La radiografía panorámica (Fig. 2) reveló una ligera reabsorción de las crestas alveolares. La Tomografía Axial Computarizada (TAC) mostró en el corte frontal (Fig. 3A) reabsorción de las crestas alveolares por vestibular y palatino, quedando aparentemente el diente 26 sin soporte óseo. También se apreció disminución del tamaño de la cavidad sinusal maxilar izquierda, por la presencia de una imagen informada en este estudio como compatible con mucocelo de seno maxilar izquierdo. En un corte axial (Fig. 3B), se comprobó que la lesión quística afectaba la pared anterior de seno maxilar, y la cortical bucal era discontinua en algunos sectores lo que dio lugar a la sospecha de que la lesión podría estar asociada a la hiperplasia gingival.

Los exámenes de laboratorio de rutina y endocrinológicos (Tiroxina total, Tirotrófina, Testosterona Total, Hormona Luteinizante, Estradiol,

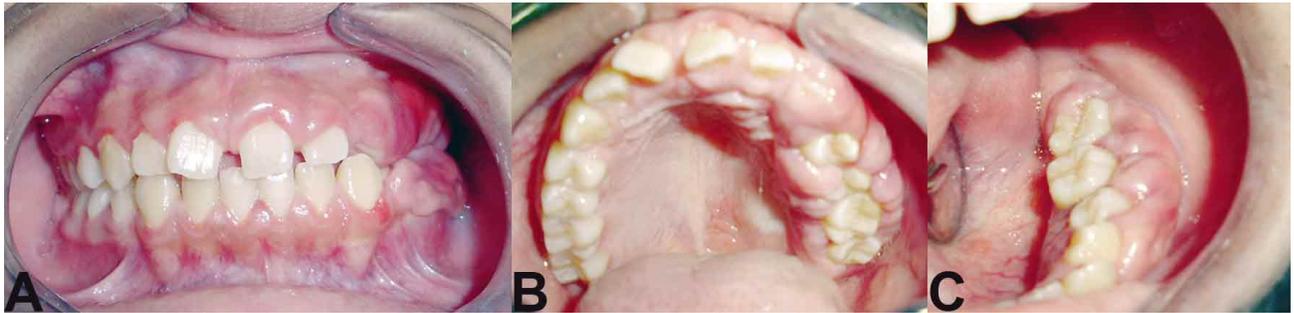


Fig. 1. A. En oclusión la paciente presenta recubrimiento total de sus elementos dentarios del lado izquierdo por el tejido gingival hiperplásico. B. En una vista oclusal se puede apreciar el compromiso palatino y bucal del hemiarco izquierdo. C. Idéntica situación se presenta en el hemiarco inferior izquierdo.



Fig. 2. Evaluación radiológica.



Fig. 3. Tomografía Computarizada, corte frontal (A) y corte axial (B).

Prolactina y Progesterona) estaban dentro de los parámetros normales. Se solicitó Eco Doppler (Fig. 4) de vasos de cabeza y cuello por sospecha de una

mayor irrigación en el sector afectado. La misma informó que la irrigación en este sector era similar al del lado opuesto.

En una fase inicial se realiza una biopsia diagnóstica del tejido gingival obtenido por bucal del diente 23 que informó: hiperparaqueratosis, hiperplasia epitelial, hiperplasia pseudoepiteliomatosa focal. Fibrosis subepitelial marcada, esclerosis, focos de calcificación e infiltrado linfoplasmocitario severo. Presencia de colonias microbianas asociadas al epitelio. Con los signos clínicos presentes y el informe histopatológico se arriba a un diagnóstico de Fibromatosis Gingival Idiopática (FGI) Unilateral.

Se enfocó la terapia con la eliminación quirúrgi-

ca de todo el tejido afectado realizado con anestesia general, con entubación endotraqueal. Se comprobó la integridad de la tabla vestibular, lo que puso en evidencia que la hiperplasia gingival no tenía relación con el mucocelo de seno maxilar. Se ferulizaron los dientes comprometidos por la reabsorción ósea y se le indicó higiene oral adecuada y controles posteriores.

La paciente fue evaluada con controles periódicos cada 3 meses en el primer año y luego semestralmente en los 3 años siguientes no encontrándose recidiva de la lesión (Fig. 5).

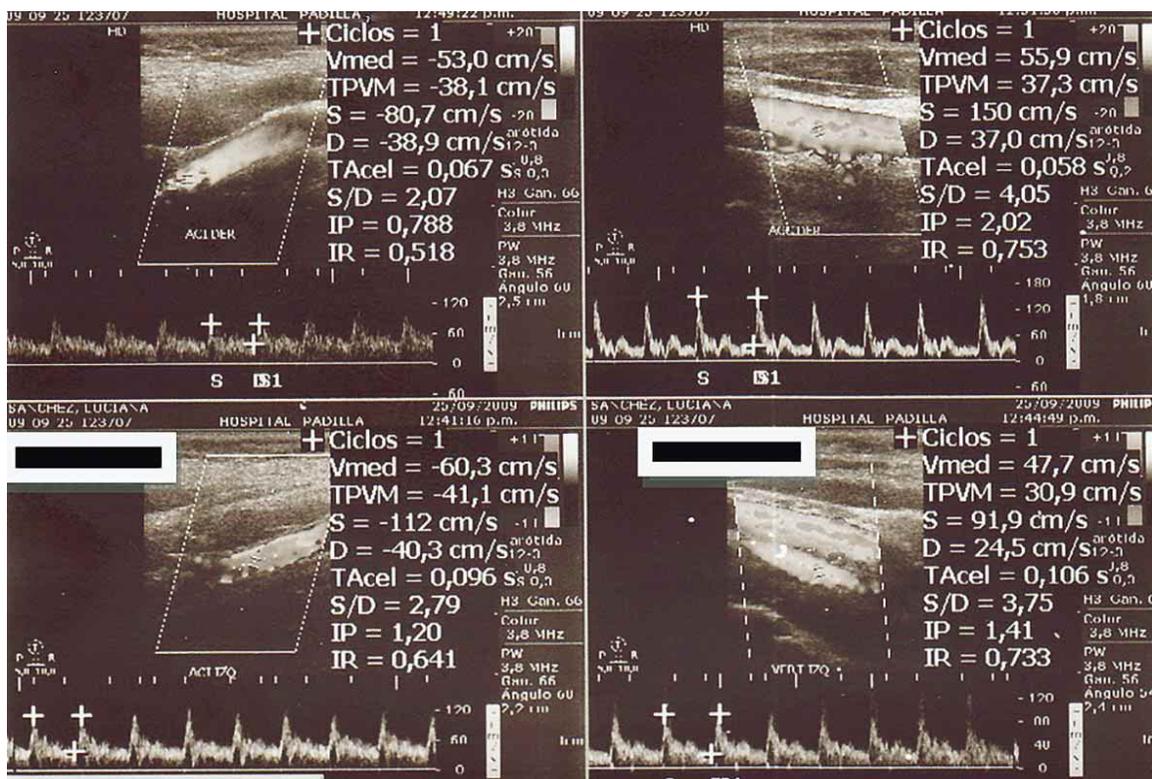


Fig. 4. Eco Doppler.

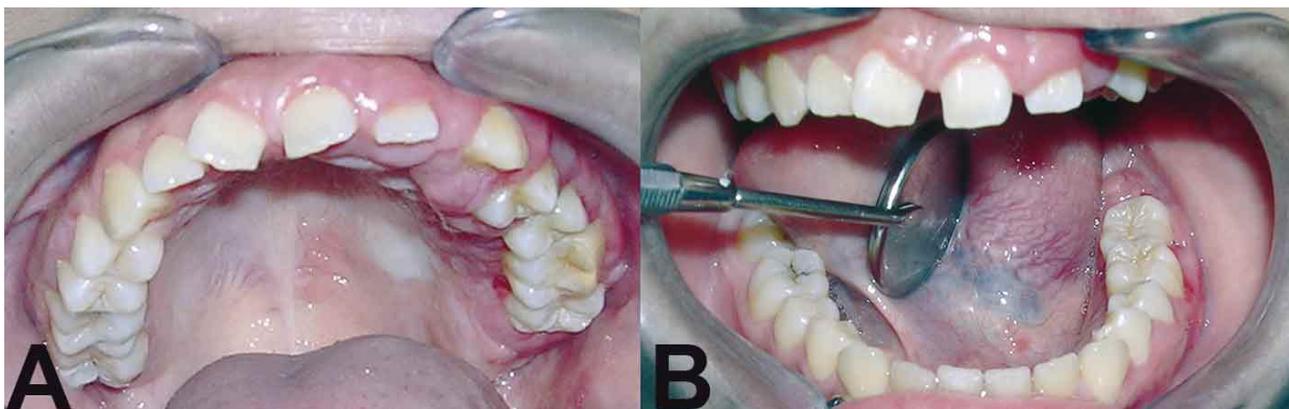


Fig. 5. Evaluación clínica intraoral mostrando los resultados posquirúrgicos.

DISCUSIÓN

La FGI es una patología poco frecuente caracterizada por crecimiento del volumen de la encía con acumulación de tejido conectivo. Se puede presentar como un aumento generalizado de las encías (bilaterales y simétricas), siendo la forma localizada menos frecuente pudiendo permanecer en estado latente y de repente extenderse a uno o ambos maxilares. Se debe realizar el diagnóstico diferencial con el crecimiento de las encías debido a patologías como leucemia y trombocitopenia, como consecuencia del uso de fármacos como fenitoína, ciclosporina y bloqueadores de calcio, gingivitis asociada a Diabetes mellitus y gingivitis asociada a placa bacteriana (Livada & Shiloah). También puede presentarse con una alteración hereditaria autosómica dominante y menos frecuentemente como autosómica recesiva (Aghili & Goldani Moghadam). Es por ello que los pacientes con Fibromatosis Gingival deben ser examinados cuidadosamente y se debe pedir exámenes de laboratorio para excluir algunas de estas situaciones. En el caso presentado no se pudo detectar antecedentes hereditarios siendo el único caso familiar. Asimismo, se determinó que el único tejido involucrado era el gingival, descartándose la asociación a hipertricosis, retardo mental, epilepsia o formar parte de algún síndrome. La paciente no refirió consumo de drogas que podrían estar asociadas a esta patología.

Con los estudios complementarios y las características del estudio anatomopatológico descritas para la fibromatosis gingival (Araujo *et al.*, 2003), las cuales fueron informadas en esta paciente se diagnóstica FGI Unilateral. En algunos casos reportados la Fibromatosis Gingival Unilateral fue acompañado con compromiso periodontal severo, estas patologías generalmente se presentan en forma independiente (Japatti *et al.*, 2013; Padmanabhan & Dwarakanath, 2013; Shetty *et al.*, 2014). En la paciente no se encontró periodontitis asociada. De los distintos procedimientos disponibles para extirpar el tejido gingival, en esta paciente se indicó la extirpación quirúrgica y se recomendó una adecuada higiene oral, lo que mejora la estética de la paciente y la competencia masticatoria. Otros autores han documentado la recurrencia de Fibromatosis gingival que requieren tratamientos repetidos (Csifó-Nagy *et al.*, 2013; Devi *et al.*, 2013). La paciente presentada en este caso fue controlada durante cuatro años sin que se observe recurrencia en este período.

CONCLUSIÓN

El presente caso es una presentación atípica por la unilateralidad de la Fibromatosis Gingival Idiopática. Después del tratamiento quirúrgico y una buena higiene oral con exámenes de control efectuados durante cuatro años no se observó recurrencia. Aunque es una patología poco frecuente es necesario que el odontólogo conozca la fisiopatología y la importancia de un diagnóstico y tratamiento multidisciplinario para arribar a un resultado sin grandes secuelas físicas y psíquicas en el paciente. Es esencial la educación y motivación de la higiene oral como el control clínico para evitar la recurrencia.

WIERNA, A. I.; ANSONNAUD, A. M.; CARINO, S. N.; SORIA, A. G.; GONZÁLEZ, M. M. & DIP, A. Unilateral idiopathic gingival fibromatosis: Case report with four-year follow up. *Int. J. Odontostomat.*, 9(1):19-24, 2015.

ABSTRACT: Gingival fibromatosis is a rare disease characterized by progressive enlargement of the gingiva caused by an increase in submucosal connective tissue. The enlargement may potentially cover the exposed tooth surfaces. Idiopathic gingival fibromatosis (IGF) is a heterogeneous group of disorders with no definite cause. The aim of this study is to present a 13-year-old female patient with unusual clinical forms of Unilateral FGI with a complete analysis of the features of the clinical diagnosis, treatment and follow-up for four years. Intraoral examination revealed severe gingival overgrowth involving both the upper arch and the lower arch, affecting on the left side. The right side of the mouth was unaffected. There was no significant pain. The lesion was diffuse, firm and fibrotic. Her medical and family history was also non-contributory. The patient was not receiving any antiepileptic, antihypertensive, or immunosuppressive medications that could contribute to the gingival enlargement. Histopathological examination showed hyperparakeratinized stratified squamous epithelium, presence of a thickened acanthotic epithelium and focal hyperplasia. Underlying connective tissue stroma was collagenous with numerous lymphoplasmacytic infiltrate. Unusual findings include the presence of calcified particles. Bevel gingivectomy was taken to remove gingival overgrowth. This case is thus a rare and atypical presentation of gingival fibromatosis. The patient was advised to maintain good oral hygiene to minimize the effect of inflammation on fibroblasts. In our case, even after four years of follow-up, no recurrence of gingival overgrowth was observed. Unilateral IGF is a relatively rare condition with poorly understood etiopathogenesis and recurrence rates. The cases should be treated with a multidisciplinary management. Treatment appreciably improved the patient's psychological, aesthetics and masticatory competence.

KEY WORDS: idiopathic gingival fibromatosis, differential diagnosis.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Aghili, H. & Goldani Moghadam, M. Hereditary gingival fibromatosis: a review and a report of a rare case. *Case Rep. Dent.*, 2013:930972, 2013.
- Araujo, C. S.; Graner, E.; Almeida, O. P.; Sauk, J. J. & Coletta, R. D. Histomorphometric characteristics and expression of epidermal growth factor and its receptor by epithelial cells of normal gingiva and hereditary gingival fibromatosis. *J. Periodontal Res.*, 38(3):237-41, 2003.
- Baptista, I. P. Hereditary gingival fibromatosis: a case report. *J. Clin. Periodontol.*, 29(9):871-4, 2002.
- Bayar, G. R.; Özkan, A.; Sençimen, M.; Altug, H. A.; Gülses, A. & Günhan, Ö. Idiopathic gingival fibromatosis: a case report. *Gulhane Med. J.*, 53(4):294-6, 2011.
- Bittencourt, L. P.; Campos, V.; Moliterno, L. F.; Ribeiro, D. P. & Sampaio, R. K. Hereditary gingival fibromatosis: review of the literature and a case report. *Quintessence Int.*, 31(6):415-8, 2000.
- Breen, G. H.; Addante, R. & Black, C. C. Early onset of hereditary gingival fibromatosis in a 28-month-old. *Pediatr. Dent.*, 31(4):286-8, 2009.
- Cekmez, F.; Pirgon, O. & Tanju, I. A. Idiopathic gingival hyperplasia. *Int. J. Biomed. Sci.*, 5(2):198-200, 2009.
- Csifó-Nagy, B.; Hulik, E.; Zsoldos, G. M. & Gera, I. Surgical correction of excessive gingival enlargements. Case studies. *Fogorv. Sz.*, 106(2):61-70, 2013.
- Devi, P. K.; Kumar, G. P.; Bai, Y. D & Ammaji, A. D. Ipsilateral idiopathic gingival enlargement and its management using conventional gingivectomy and diode laser: A recurrent case after 15 years. *J. Indian Soc. Periodontol.*, 17(3):387-90, 2013.
- Doufexi, A.; Mina, M. & Ioannidou, E. Gingival overgrowth in children: epidemiology, pathogenesis, and complications. A literature review. *J. Periodontol.*, 76(1):3-10, 2005.
- Gontiya, G.; Bhatnagar, S.; Mohandas, U. & Galgali, S. R. Laser-assisted gingivectomy in pediatric patients: a novel alternative treatment. *J. Indian Soc. Pedod. Prev. Dent.*, 29(3):264-9, 2011.
- Günhan, O.; Gardner, D. G.; Bostanci, H. & Günhan, M. Familial gingival fibromatosis with unusual histologic findings. *J. Periodontol.*, 66(11):1008-11, 1995.
- Jaju, P. P.; Desai, A.; Desai, R. S. & Jaju, S. P. Idiopathic gingival fibromatosis: case report and its management. *Int. J. Dent.*, 2009:153603, 2009.
- Japatti, S.; Bhatsange, A.; Reddy, M.; Patil, S.; Chidambar & Waghmare, A. Bimaxillary unilateral gingival fibromatosis with localized aggressive periodontitis (eating the tooth at the same table). *Contemp. Clin. Dent.*, 4(3):366-70, 2013.
- Kather, J.; Salgado, M. A.; Salgado, U. F.; Cortelli, J. R. & Pallos, D. Clinical and histomorphometric characteristics of three different families with hereditary gingival fibromatosis. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol. Oral Radiol. Endod.*, 105(3):348-52, 2008.
- Kavvadia, K.; Pepelassi, E.; Alexandridis, C.; Arkadopoulou, A.; Polyzois, G. & Tossios, K. Gingival fibromatosis and significant tooth eruption delay in an 11-year-old male: a 30-month follow-up. *Int. J. Paediatr. Dent.*, 15(4):294-302, 2005.
- Livada, R. & Shiloah, J. Gummy smile: could it be genetic? Hereditary gingival fibromatosis. *J. Mich. Dent. Assoc.*, 94(12):40-3, 2012.
- Newman, M. G.; Takei, H. H. & Carranza, F. A. (Eds.). *Clinical Periodontology*. 9th ed. Philadelphia, W. B. Saunders, 2002.
- Padmanabhan, S. & Dwarakanath, C. D. Severe gingival enlargement associated with aggressive periodontitis. *J. Indian Soc. Periodontol.*, 17(1):115-9, 2013.
- Sakamoto, R.; Nitta, T.; Kamikawa, Y.; Kono, S.; Kamikawa, Y.; Sugihara, K.; Tsuyama, S. & Murata, F. Histochemical, immunohistochemical, and ultrastructural studies of gingival fibromatosis: a case report. *Med. Electron Microsc.*, 35(4):248-54, 2002.
- Shetty, A.; Gupta, N.; Shetty, D. & Kadakia, R. Idiopathic gingival enlargement associated with generalized aggressive periodontitis in a 19-year-old female. *J. Indian Soc. Periodontol.*, 18(2):244-8, 2014.
- Xiao, S.; Bu, L.; Zhu, L.; Zheng, G.; Yang, M.; Qian, M.; Hu, L.; Liu, J.; Zhao, G. & Kong, X. A new locus for hereditary gingival fibromatosis (GINGF2) maps to 5q13-q22. *Genomics*, 74(2):180-5, 2001.

Dirección de Correspondencia:
Alicia I. Wierna
Jefe de Trabajos Prácticos
Cátedra de Semiología y Clínica Estomatológica
Facultad de Odontología
Universidad Nacional de Tucumán
Rivadavia 1898
CP: 4000
San Miguel de Tucumán
ARGENTINA

Recibido : 09-07-2014
Aceptado: 30-12-2014

Email: aliwierna@yahoo.com.ar