

Lignöz gingivitis: olgu sunumu

Ligneous gingivitis: a case report

Hasan Gündoğar¹, Kemal Üstün¹, Ufuk Sezer¹, Kamile Erciyas¹

¹Gaziantep Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Periodontoloji Anabilim Dalı, Gaziantep

Özet

Lignöz gingivitis, çok nadir görülen ve destrüktif membranöz hastalık diye de adlandırılan bir periodontal durumdur. Lignöz gingivitis 1973 yılında Frimodt-Moller tarafından tanımlanmasına rağmen, lignöz konjunktivitinin tanımlanması daha eskidir. Lignöz konjunktivit 1847 yılında Bouisson tarafından tanımlanmıştır. Lignöz gingivitis ülserasyonlu gingival büyümeler ile karakterizedir. Genellikle konjunktival lezyonlar ile gingival lezyonlar bir arada gözlenir ve aynı histopatolojik değişime sahiptir. 32 aylık, maksilla ve mandibulasında dişeti büyümeleri olan hasta velileri tarafından ağrı şikayeti ile Gaziantep Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Periodontoloji Anabilim Dalı'na muayene için getirildi. Gingival büyümeler ağrılı, hiperemik, nodüler, tahtamsı sertlikte ve üzeri pseudomembran ile kaplı idi. Maksiller ve mandibular dişlerde radyografik olarak; ataçman kaybı gözlenmezken, alveolar kemik seviyesi normal idi. Hematolojik analizinde ise artmış beyaz kan hücreleri ve lenfosit gözlenirken, nötrofil sayısında dramatik bir düşüş mevcuttu. Bu olgu Frimodt-Mollers'den bu yana gözlemlenen en genç ikinci lignözgingivitis vakası olma özelliğini taşımaktadır. Birçok vaka raporunda, histopatolojik değişimlere ve plazminojen seviyesine odaklanılmasına rağmen, lignöz gingivitis ve konjunktivitinin patolojisi tam olarak aydınlatılamamıştır ve klinisyenlerin en çok zorlandıkları/zorlanacakları konu ise şimdiye kadar yapılan tedavilerin etkinliği nasıl arttırılacağı yönündedir.

Anahtar kelimeler: Gingivitis; lignöz; lignöz konjunktivit; periodontal hastalık.

Abstract

Ligneous gingivitis, also known as destructive membranous periodontal disease is a rare periodontal condition. While first case was published by Frimodt-Moller at 1973, ligneous conjunctivitis was first described in 1847 by Bouisson. It is characterized by nodular gingival enlargement with ulcerations. Usually conjunctival and gingival lesions were observed together and have same histopathological changes. A 32 month-old female patient with ligneous conjunctivitis, was referred to Gaziantep University, Faculty of Dentistry, Department of Periodontology clinic with the diagnosis of spread gingival enlargement at the mandible and maxilla. These gingival enlargements were painless, hyperemic, nodular, and woody-like and covered by pseudo membrane. Radiographic evaluation showed normal alveolar bone and no attachment loss. Hematological analyses showed an increase in white blood cells, and increase in lymphocytes but decrease in neutrophils. As far as we know this is the youngest case reporting ligneous gingivitis after Frimodt-Mollers' case. Although most of the case reports focused on histopathological change and level of plasminogen in these patients, up to now exact information about pathogenesis of ligneous gingivitis and conjunctivitis is not available in the literature. Question of the researchers about how to manage and effectively treat this disease remains unclear.

Keywords: Gingivitis; ligneous; ligneous conjunctivitis; periodontal disease.

Giriş

Lignöz kelimesi "odunsu" mukozal lezyonları tabir eder. Lignöz mukozal hastalıklar ise genetik geçişli ve mukozal dokularda pseudomembran formasyonu gösteren sapsız ve sert görünümde lezyonlara sahip hastalıklar olarak sınıflandırılmaktadır. Lignöz mukozal hastalıklar birden fazla dokuda tutulum gösterebilirler (1). Ancak bu tutulumlar arasında gingival ve kojuktival tutulumlar sıklıkla çocukluk çağında gözlemlenir ve dolayısı ile erken teşhiste yardımcıdır. Ancak literatürde deri, bayan genital mukozası ve trakeabronşial ark tutulumları da mevcuttur (1,2). Oluşan "odunsu" lezyonların plazminojen (PLJ) eksikliğine bağlı olarak fibrin birikmesi sonucu oluştuğu bilinmektedir.

Hücre migrasyonundan anjiogenezis ve fibrinolizise kadar birçok olayda önemli rol oynayan PLJ, karaciğerde sentezlendikten sonra kan dolaşımına proenzim formunda geçer ve aktif enzim formatı olan plazmine (fibrinolizine) dönüşür. Yara yüzeyinin iyileşmesi esnasında, "doku plazminojen aktivatörünü" aktive eder ve böylece fibrin dokunun yıkımını sağlar. Temelde hemoastazisin sağlanmasında önemli bir role

İletişim/Correspondence to: Kemal Üstün, Gaziantep Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Periodontoloji Anabilim Dalı, Gaziantep, TÜRKİYE
Tel: + 90 342 3606060 k_ustun@yahoo.com

Geliş Tarihi: 26.02.2013 **Kabul Tarihi:** 15.03.2013
Received: 26.02.2013 **Accepted:** 15.03.2013

sahip olan PLJ, pro-matriks metalloproteinazları aktive ederek doku yıkımında da dolaylı yoldan rol oynar.(3).

Plazminojen eksikliği konjenital veya kazanılmış olabilir. Kazanılmış PLJ eksikliğinin temel nedenlerinden biri karaciğer hastalıklarıdır. Konjenital PLJ eksikliği ise tip I hipoplazminojenemi ve tip II displazminojenemi olarak ikiye ayrılır (2). Hipoplazminojenemi, otozomal resesif geçiş gösteren genetik bir hastalıktır ve genel popülasyonda yaklaşık olarak %0.3 ile %0.4 oranında gözlemlenmektedir (4). Hipoplazminojenemi, PLJ'nin tamamen veya kısmen yokluğunda kullanılır, başka bir ifade ile hipoplazminojenemi hastalığında çok düşük veya saptanamayan düzeyde PLJ antijen seviyesi ve aktivitesi mevcuttur. Bundan dolayı bu hastalarda yara iyileşmesinde gecikme, inflamasyon sonrasında bölgede fibrin birikimi gözlenmektedir (3). Bölgede fibrin birikmesinden dolayı mukozal sahalar sert bir görünüm kazanmaktadır, bu görüntüden ötürü Latince odunsu demek olan "lignöz" terimi kullanılmıştır (5).

Lignöz gingivitis (LG); ülserasyon sahaları içeren nodüler gingival büyümelere sahip, çok ender rastlanılan bir periodontal durumdur (6). Lignöz gingivitis 1973

DOI: 10.5455/GMJ-30-2013-130
www.gantep.edu.tr/~tipdergi
ISSN 1300-0888

yılında Frimodt-Moller (7) tarafından tanımlanmasına rağmen, lignöz konjüktivitinin tanımlanması daha eskidir. Lignöz konjüktivit (LK) ilk olarak 1847 yılında Bouisson tarafından tanımlanmıştır (8). Genellikle LG, LK ile birlikte görülmesine rağmen son literatürlerde tüm mukozal yüzeyleri tutan formları ile tekli formları da tanımlanmıştır (9).

Bu bilgiler ışığında; kliniğimizde takip edilen LG vakası ve oral bulgularının sunumu yapılacaktır.

Olgu

Otuz iki aylık (kız), maksilla ve mandibulasında pseudomembranlı dişeti büyümeleri olan hasta velileri tarafından ağrı şikâyeti ile Gaziantep Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Periodontoloji A.D.' ye muayene için getirildi. Fizik muayenede ilk dikkati çeken; gözlerde normalden yoğun gözyaşı sekresyonu, ödematöz göz kapakları ve gözlerin kapanmada zorlanması idi (Resim 1). İntraoral muayenede sarı beyazımsı renkte nekrotik dokuya benzer pseudomembranlı hiperplastik gingiva gözlendi. Dişetlerinde hem spontan hem de provake ağrı mevcuttu. Dişetlerindeki büyümeler ağrılı, hiperemik, nodüler, tahtamsı sertlikte ve üzeri pseudomembran ile kaplı idi. Diğer oral yapılar incelendiğinde dil ve ağız tabanı normal, yanak ve dudak mukozası ise hafif hiperemikti (Resim 2). Yapılan radyografik muayenede ise maksiller ve mandibular dişlerde; ataçman kaybı gözlenmezken, alveolar kemik seviyesi normal idi (Resim 3).



Resim 1. Lignöz konjüktivit tablosunun görünümü.



Resim 2. Lignöz gingivitis tablosunun görünümü.

Ebeveynler muayene edildiğinde; LG ve LK belirtisi gözlenmezken, kendisinden büyük erkek kardeşinde sadece LK mevcuttu ayrıca hasta ebeveynlerinde akraba evliliği mevcut değildi. Bu belirtiler üzerine hasta ve yakınları konsültasyon için Gaziantep Üniversitesi Tıp Fakültesi Göz Hastalıkları Anabilim Dalı'na gönderildi.

Konsültasyon sonrasında hematolojik analizleri yapıldı ve fizik muayene ile teşhisleri kondu. Hematolojik analizinde ise artmış beyaz kan hücresi ve lenfosit gözlenirken, nötrofil sayısında dramatik bir düşüş mevcuttu. Hasta yakınlarının izni olmadığı için hastaya detaylı periodontal muayene ve genetik analiz yapılamadı.



Resim 3. Hastanın panoramik radyografının görünümü.

Tartışma

Lignöz gingivitis ilk olarak 1973 yılında Frimodt-Mollers tarafından tanımlanmıştır (7). O tarihten bu yana LG prevalansı ve insidansı konusunda kesin bir yargıya varacak çalışmalar ne yazık ki yapılamamıştır. Bunun nedeni vakanın sporadik olmasından kaynaklanmaktadır. Pubmedde yapılan taramaya göre LG'nin bayanlarda erkeklerden daha fazla görüldüğü gözlemlenmiştir (8), bizim vakamız da bayan olması açısından literatürde sık bildirilen gruba dahildir.

Lignöz gingivitis ile alakalı olgu sunumlarının neredeyse üçte ikiden fazlasını Türk popülasyonundaki kişiler oluşturmaktadır (8, 10-13), bunun nedeni Günhan ve ark. (1) göre Türk popülasyonundaki akraba evliliklerinin diğer popülasyonlardakine nazaran daha sık oluşudur. Vakamız bu bağlamda Türk popülasyonunda yer almasına rağmen ebeveynler arasında akraba evliliği mevcut değildi.

Literatürde LG'nin belirti vermesi ile ilgili herhangi bir yaş aralığı tespit edilememiş (2,8), sadece erken ve geç lezyonların sınıflandırması Günhan ve ark. (1) tarafından yapılmıştır. Bu noktada vakamızdaki lezyonlar Günhan ve ark. yapmış olduğu çalışma ile uyumludur ve pubmed verilerine göre bu olgu gözlemlenen en genç ikinci LG vakası olma özelliğini taşımaktadır (8). Erken lezyonların özellikle ağız ve gözde gözlemlenmesinin temel nedeni mikroorganizma girişine açık olmalarından kaynaklanmaktadır.

Birçok vaka raporunda, histopatolojik değişimlere ve PLJ seviyesine odaklanılmasına rağmen, LG ve LK'nın fizyopatolojisi tam manasıyla aydınlatılamamıştır ve klinisyenlerin en çok zorlandıkları/zorlanacakları konu ise şimdiye kadar yapılan tedavilerin etkinliğidir.

Lignöz gingivitis kesinlikle LK ile ilişkilidir ve LK'daki odunu görünümün oluşmasına neden olan histopatolojik değişimler LG'de dişetinde de gözlenmektedir. Aydınlatılması gereken diğer bir husus ise gingival, oküler ve nadiren de olsa diğer mukozal

dokulardaki odunsu doku hiperplazilerinin immünolojik temelleridir.

Kaynaklar

1. Gunhan O, Avci A, Dereci O, Akgun S, Celasun B. Extensive fibrin accumulation and accompanying epithelial changes in the pathogenesis of ligneous mucosal disease (ligneous periodontitis). *Am J Dermatopathol* 2012;34(1):35-40.
2. Schuster V, Seregard S. Ligneous conjunctivitis. *Surv Ophthalmol* 2003;48(4):369-88.
3. Tefs K, Gueorguieva M, Klammt J, Allen CM, Aktas D, Anlar FY, et al. Molecular and clinical spectrum of type I plasminogen deficiency: a series of 50 patients. *Blood* 2006;108(9):3021-6.
4. Tefs K, Georgieva M, Seregard S, Tait CR, Luchtman-Jones L, Ziegler M, et al. Characterization of plasminogen variants in healthy subjects and plasminogen mutants in patients with inherited plasminogen deficiency by isoelectric focusing gel electrophoresis. *Thromb Haemost* 2004;92(2):352-7.
5. Schuster V, Seidenspinner S, Zeitler P, Escher C, Pleyer U, Bernauer W, et al. Compound-heterozygous mutations in the plasminogen gene predispose to the development of ligneous conjunctivitis. *Blood* 1999;93(10):3457-66.
6. Colucci M, D'Aprile AM, Italia A, Gresele P, Morser J, Semeraro N. Thrombin activatable fibrinolysis inhibitor (TAFI) does not inhibit in vitro thrombolysis by pharmacological concentrations of t-PA. *Thromb Haemost* 2001;85(4):661-6.
7. Frimodt-Moller J. Conjunctivitis ligneosa combined with a dental affection. Report of a case. *Acta Ophthalmol (Copenh)* 1973;51(1):34-8.
8. Sivoletta S, De Biagi M, Sartori MT, Berengo M, Bressan E. Destructive membranous periodontal disease (ligneous gingivitis): a literature review. *J Periodontol* 2012;83(4):465-76.
9. Chi AC, Prichard E, Richardson MS, Rasenberger KP, Weathers DR, Neville BW. Pseudomembranous disease (ligneous inflammation) of the female genital tract, peritoneum, gingiva, and paranasal sinuses associated with plasminogen deficiency. *Ann Diagn Pathol* 2009;13(2):132-9.
10. Gunhan O, Gunhan M, Berker E, Gurgan CA, Yildirim H. Destructive membranous periodontal disease (ligneous periodontitis). *J Periodontol* 1999;70(8):919-25.
11. Kurtulus I, Kazmi B, Lewis MP, Solakoglu S, Schuster V, Scully C, et al. Altered functional activity patterns of fibroblasts related to periodontitis by systemic plasminogen deficiency (ligneous periodontitis). *Quintessence Int* 2011;42(7):601-9.
12. Baltacioglu E, Akalin FA, Topaloglu E, Sukuroglu E, Cobanoglu U. Ligneous periodontitis and gingival antioxidant status: report of two cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007;104(6):803-8.
13. Baykul T, Bozkurt Y. Destructive membranous periodontal disease (ligneous periodontitis): a case report and 3 years follow-up. *Br Dent J* 2004;197(8):467-8.