

青少年局限性海绵状牙龈增生 1 例

杨靖梅¹ 曾昕² 吴亚菲¹ 赵寰¹

1. 口腔疾病防治全国重点实验室 国家口腔医学中心 国家口腔疾病临床医学研究中心
四川大学华西口腔医院牙周病科, 成都 610041;
2. 口腔疾病防治全国重点实验室 国家口腔医学中心 国家口腔疾病临床医学研究中心
四川大学华西口腔医院黏膜病科, 成都 610041

[摘要] 青少年局限性海绵状牙龈增生 (LJSGH) 是一种具有独特病理表现的牙龈过度增生性疾病, 其临床表现不典型, 病因和发病机制尚不明确, 在国内尚未有病例报道。该病的诊断主要依靠病理检测, 治疗后存在复发可能性, 最佳治疗方法仍缺乏一定的循证医学证据。本文报道 1 例 LJSGH, 并结合文献复习, 对其临床特点、病理学特征和治疗进行总结, 为该病的诊治提供参考。

[关键词] 青少年局限性海绵状牙龈增生; 牙龈; 牙周手术

[中图分类号] R781.4 **[文献标志码]** B **[doi]** 10.7518/hxkq.2024.2024023



本文链接 开放科学标识码

Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia: a case report

Yang Jingmei¹, Zeng Xin², Wu Yafei¹, Zhao Huan¹

1. State Key Laboratory of Oral Diseases & National Center for Stomatology & National Clinical Research Center for Oral Diseases & Dept. of Periodontics, West China Hospital of Stomatology, Sichuan University, Chengdu 610041, China; 2. State Key Laboratory of Oral Diseases & National Center for Stomatology & National Clinical Research Center for Oral Diseases & Dept. of Oral Medicine, West China Hospital of Stomatology, Sichuan University, Chengdu 610041, China

Supported by: Sichuan Science and Technology Program (2022NSFSC1521); National Natural Science Foundation of China (82170970)

Correspondence: Zhao Huan, E-mail: cdzhaohuan@qq.com

[Abstract] Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia (LJSGH) is a kind of gingival hyperplasia with unique pathological manifestations. Its clinical manifestations are atypical, and the etiology and pathogenesis are unclear. No case report was reported in China. The diagnosis of this disease mainly relies on pathological testing, and recurrence may occur after treatment. The best treatment method still lacks medical evidence. This paper reports a case of LJSGH in a teenager and summarizes its clinical, pathological, and treatment through literature review. This work provides a reference for the diagnosis and treatment of this disease.

[Key words] localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia; gingiva; periodontal surgery

青少年局限性海绵状牙龈增生 (localized ju-

venile spongiotic gingival hyperplasia, LJSGH) 又称青少年海绵状龈炎 (juvenile spongiotic gingivitis, JSG) [1], 是一种具有特殊病理表现的牙龈增生, Darling 等 [1] 在 2007 年报道, 较为罕见 [2]。既往文献报道好发于儿童及青少年 [3], 女性较多 [2-3], 患者中 82% 是白人 [4], 主要位于上颌前牙唇侧牙龈 [5], 发病率仅为 0.069% [2]。本文报道 1 例位于上颌前牙

[收稿日期] 2024-01-13; **[修回日期]** 2024-04-23

[基金项目] 四川省科技计划 (2022NSFSC1521); 国家自然科学基金 (82170970)

[作者简介] 杨靖梅, 主治医师, 博士, E-mail: yjm881222@hotmail.com

[通信作者] 赵寰, 副主任医师, 博士, E-mail: cdzhaohuan@qq.com

唇侧的LJSGH，并结合文献复习总结该病的临床特点、病理学特征和治疗。

1 病例报告

患者，女，10岁，2023年8月以“上前牙牙龈增生6月+”为主诉来四川大学华西口腔医院就诊。现病史：患者发现上前牙牙龈增生6月+，初起时较小，自述外院就诊后怀疑“浆细胞龈炎”，“洁牙”后局部使用地塞米松涂擦后自觉好转，2月前自觉增生物增大，触碰不适，刷牙出血。既往史：既往体健，否认全身系统疾病、药物过敏史及长期用药史。

专科检查：11牙唇侧牙龈增生约2 cm×2 cm，颜色鲜红，界清，根向至附着龈达黏膜转折处（图1A），未波及舌侧（图1B），质地松软，触之光滑，触痛（+），探诊出血（bleeding on probing, BOP）（+），未探及牙周袋及附着丧失。锥形束CT（cone beam CT, CBCT）提示：11牙唇侧牙槽骨未见明显吸收（图1C）。临床印象：11牙唇侧新生物（LJSGH待排）。

对患者进行全口龈上洁治，2周后11牙唇侧新

生物未见明显变化（图2A），同时考虑患者在外院牙周洁治后局部药物治疗效果也无显著作用，与患者监护人沟通后，拟直接手术切除新生物行病理检查明确诊断。术前告知患者及患者监护人治疗过程，患者监护人签署知情同意书。对术区常规消毒、铺巾，局部阿替卡因浸润麻醉下完整切除新生物并刮除相应部位的骨膜及牙周膜，暴露骨面覆盖可即邦胶原蛋白海绵（无锡贝迪生物工程有限公司），5-0可吸收线〔强生（上海）医疗器械有限公司〕间断缝合胶原蛋白海绵和近、远中软组织（图2B）。术后常规给予复方氯己定含漱，术后7 d拆线，伤口愈合良好，无感染，牙龈无明显红肿（图2C、D）。苏木精-伊红（hematoxylin-eosin, HE）染色提示复层鳞状上皮增生，固有层浆细胞、淋巴细胞密集浸润（图3A），结缔组织丰富血管化。进一步免疫组织化学染色提示：全层上皮显示CK14表达阳性（图3B），CK19表达阳性（图3C）。结合形态学、免疫组织化学结果，病理诊断为：LJSGH。术后患者术区恢复良好，术后1月（图4A）及6月（图4B）随访，局部无复发。



A: 唇侧; B: 腭侧; C: CBCT影像。

图1 初诊口内照及CBCT图像

Fig 1 Intraoral photography and CBCT imaging at initial diagnosis

2 讨论

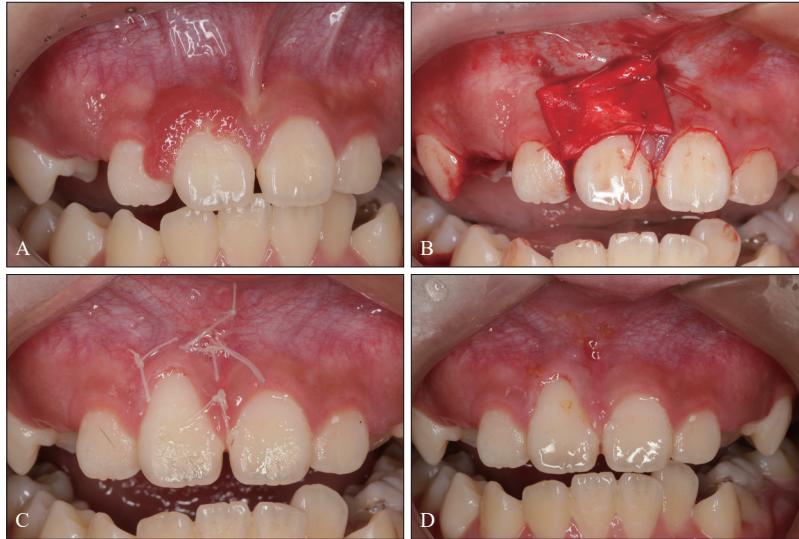
LJSGH临床表现特异性欠佳，通常表现为附着龈表面颗粒状、天鹅绒状的增生，可发生在单颗牙或多颗牙，常发生在上颌前牙区。一般无明显症状，刷牙后可出现刺激出血。LJSGH的病因和发病机制仍存在争议，与菌斑牙石的沉积缺乏相关性^[4]，少数病例可能与佩戴正畸矫治器相关。多数学者认为该病起源于牙龈结合上皮^[3]，移行到牙龈组织表面，因其角化程度低，易受到局部刺激而引起发炎和增生，目前尚未有关于LJSGH的一致性诊断标准，但其需要与青春期龈炎、浆细

胞性龈炎、急性龈乳头炎、化脓性肉芽肿等进行鉴别诊断。

青春期龈炎好发于前牙唇侧的牙龈乳头和龈缘，颜色鲜红，光亮，质地软，BOP明显，较少波及附着龈，经过牙周洁治后，牙龈红肿可明显缓解^[6]，而LJSGH对牙周基础治疗并不敏感。浆细胞性龈炎主要表现为多颗牙或者全口牙弥漫性无症状的红色病变，松软脆弱，累及附着龈和游离龈，其诊断主要依靠病理学诊断，表现为上皮不全角化，结缔组织内大量浆细胞聚集^[7]。急性龈乳头炎是一种急性非特异性炎症，常因受到机械或化学刺激，出现自发性胀痛和明显触痛，局部牙龈肿胀明显，易出血^[7]，去除刺激因素后症状得到

缓解。化脓性肉芽肿表面呈红色，质地较软，触之易出血，其诊断和鉴别诊断依靠病理学，主要

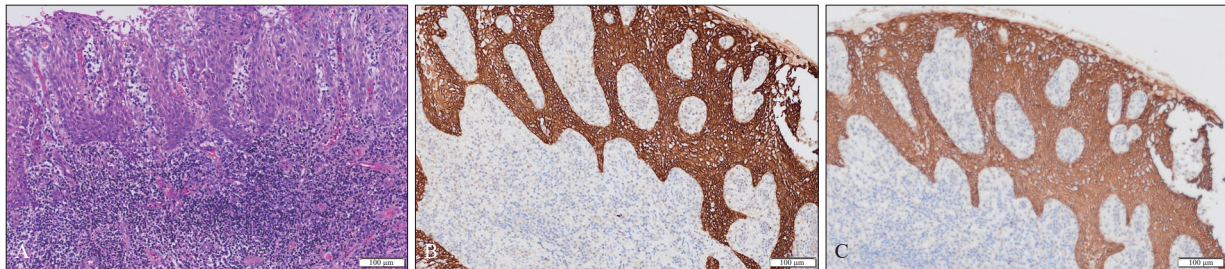
表现为肉芽组织、炎细胞和毛细血管的浸润^[7]。



A: 术前口内照; B: 术后口内照; C、D: 术后1周口内照。

图 2 术中及术后口内照

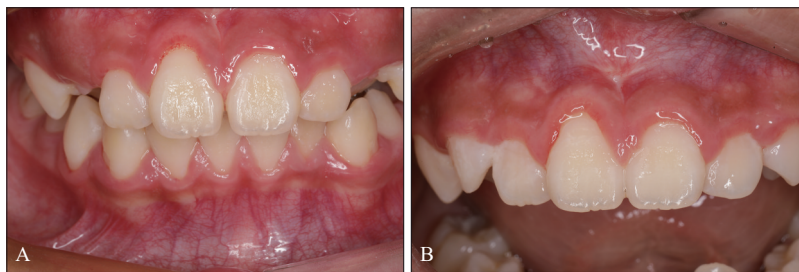
Fig 2 Intraoral photography during and after surgery



A: HE 染色; B: CK14; C: CK19。

图 3 HE 染色和免疫组织化学染色

Fig 3 HE staining and immunohistochemical staining of biopsy tissue



A: 术后1月; B: 术后6月。

图 4 术后口内照

Fig 4 Intraoral photography after surgery

LJSGH 一般根据病史及典型的上颌前牙区唇侧牙龈亮红色病损即可做出临床诊断，发病年龄也可作为诊断证据之一^[8]。但 LJSGH 临床特点缺乏特征性，故常辅助以病理诊断为最终标准。病理学上，LJSGH 主要表现为非角化复层鳞状上皮增生，分为外生/乳头型、平滑型、微乳头型^[5]，

细胞间水肿，钉突伸长，伴中性粒细胞浸润，同时固有层炎性浸润，以淋巴细胞和浆细胞为主，结缔组织下层丰富血管化^[1,9]。免疫组织化学染色中，细胞角蛋白 CK19 阳性这类特殊病例的诊断具有一定价值^[5]。据统计，在已行 CK19 免疫组织化学染色的病例中，LJSGH 病灶的全层上皮均显示

CK19 阳性表达^[1-2,9-10], 而正常上皮只在基底细胞层表达 CK19。同时, 本病例中上皮全层表达 CK-14 也是 JSGH 上皮增生的特点之一^[11], 这与既往报道^[11-13]结果一致。

因 LJSJGH 病因尚不明确, 对患者的治疗多是诊断性治疗, 仍属于对症治疗。手术切除是对于对牙周基础治疗反应不佳患者的首选常规治疗方法^[1-3,14], Argyris 等^[2]和 Chang 等^[3]对 LJSJGH 的病变进行手术切除治疗, 在 1~5 年随访中, 发现仅少数患者复发。对过去的研究进行统计发现, LJSJGH 手术后复发率为 6%~16%^[15]。光动力治疗是一种比外科手术更为保守的方法, 可用于缓解局部症状, 但目前治疗例数较少, 效果有待进一步观察^[2,16]。

通过本病例及文献回顾可知, LJSJGH 的临床表现不典型, 需要通过病理检查才能够确诊, 尽管治疗方法多样, 但仍缺乏一定的循证医学证据, 手术切除是治疗 LJSJGH 的首选方法, 但疗效的长期稳定性以及 LJSJGH 的复发可能仍面临一定的挑战, 最佳治疗方法仍在探索中。

利益冲突声明: 作者声明本文无利益冲突。

[参考文献]

- [1] Darling MR, Daley TD, Wilson A, et al. Juvenile spongiotic gingivitis[J]. J Periodontol, 2007, 78(7): 1235-1240.
- [2] Argyris PP, Nelson AC, Papanakou S, et al. Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia featuring unusual p16INK4A labeling and negative human papillomavirus status by polymerase chain reaction[J]. J Oral Pathol Med, 2015, 44(1): 37-44.
- [3] Chang JYF, Kessler HP, Wright JM. Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod, 2008, 106(3): 411-418.
- [4] Decani S, Lodi G, Sardella A, et al. Localised juvenile spongiotic gingival hyperplasia: a case of spontaneous resolution and a literature review[J]. Eur J Paediatr Dent, 2021, 22(2): 159-162.
- [5] Theofilou VI, Pettas E, Georgaki M, et al. Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia: microscopic variations and proposed change to nomenclature[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2021, 131(3): 329-338.
- [6] MacKenzie IC, Gao Z. Patterns of cytokeratin expression in the epithelia of inflamed human gingiva and periodontal pockets[J]. J Periodontal Res, 1993, 28(1): 49-59.
- [7] 孟焕新. 牙周病学[M]. 5 版. 北京: 人民卫生出版社, 2020: 133-144.
- [8] Meng HX. Periodontology[M]. 5th ed. Beijing: People's Medical Publishing House, 2020: 133-144.
- [8] 梁静, 高一珂, 张琦玥, 等. 青少年局限性海绵状牙龈增生的诊疗进展[J]. 临床口腔医学杂志, 2022, 38(3): 179-182.
- [8] Liang J, Gao YK, Zhang QY, et al. Progress in diagnosis and treatment of localized spongiotic gingival hyperplasia in adolescents[J]. J Clin Stomatol, 2022, 38(3): 179-182.
- [9] Allon I, Lammert KM, Iwase R, et al. Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia possibly originates from the junctional gingival epithelium: an immunohistochemical study[J]. Histopathology, 2016, 68(4): 549-555.
- [10] Kalogirou EM, Chatzidimitriou K, Tosios KI, et al. Localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia: report of two cases[J]. J Clin Pediatr Dent, 2017, 41(3): 228-231.
- [11] Shimono M, Ishikawa T, Enokiya Y, et al. Biological characteristics of the junctional epithelium[J]. J Electron Microsc (Tokyo), 2003, 52(6): 627-639.
- [12] Lafuente-Ibáñez de Mendoza I, Alberdi-Navarro J, Marichalar-Mendia X, et al. Characterization of juvenile spongiotic gingival hyperplasia as an entity of odontogenic origin[J]. J Periodontol, 2019, 90(12): 1490-1495.
- [13] Silveira HA, Toral-Rizo VH, Lara-Carrillo E, et al. Spongiotic hyperplasia of the oral mucosa: case series and immunohistochemical analysis[J]. Oral Maxillofac Surg, 2022, 26(2): 333-337.
- [14] de Freitas Silva BS, Silva Sant'Ana SS, Watanabe S, et al. Multifocal red bands of the marginal gingiva[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2015, 119(1): 3-7.
- [15] Nogueira VKC, Fernandes D, Navarro CM, et al. Cryotherapy for localized juvenile spongiotic gingival hyperplasia: preliminary findings on two cases[J]. Int J Paed Dentistry, 2017, 27(3): 231-235.
- [16] Vieira DL, Leite AF, de Souza Figueiredo PT, et al. A conservative approach for localized spongiotic gingivitis hyperplasia using photodynamic therapy: a case report and review of the literature[J]. Photobiomodul Photomed Laser Surg, 2019, 37(1): 57-61.

(本文编辑 张玉楠)