

Hypertrophie gingivale
Maladie héréditaire
Gingivectomie

*Gingival overgrowth
Hereditary disease
Gingivectomy*

Suivi du traitement d'une fibromatose gingivale héréditaire sur 7 ans : démarche diagnostique et prise en charge

E. AUBER, M.-L. COLOMBIER

7-year follow-up treatment of a hereditary gingival fibromatosis: diagnostic approach and treatment plan

ÉLISE AUBER. Ancienne interne en Médecine Bucco-Dentaire des hôpitaux de Paris. Diplôme Universitaire de Parodontie Clinique. Université Paris-Descartes. Hôpital Louis Mourier, Colombes. MARIE-LAURE COLOMBIER. PU-PH. Département Parodontologie, Paris-Descartes. Hôpital Louis Mourier, Colombes.

RÉSUMÉ

Cette observation rapporte le cas d'une jeune fille de 12 ans, adressée pour une prise en charge d'une hypertrophie gingivale généralisée sévère compromettant la poursuite de son traitement orthodontique. Une démarche diagnostique rigoureuse a permis de mettre en évidence une fibromatose gingivale héréditaire (maladie gingivale rare d'origine génétique, isolée ou associée à d'autres syndromes génétiques, responsable d'une fibrose du tissu gingival). La prise en charge pendant les 7 ans de suivi de la patiente, met l'accent sur l'importance d'une étroite collaboration entre le parodontiste et l'orthodontiste, sur la nécessité d'un suivi thérapeutique régulier et souligne le problème lié aux récurrences après les chirurgies d'exérèse du tissu gingival excédentaire.

ABSTRACT

This article describes the case of a 12-year-old girl, referred for the treatment of a severe generalized gingival overgrowth compromising the success of her orthodontic treatment. A rigorous diagnostic approach allowed to diagnose a hereditary gingival fibromatosis (a rare gingival disease of genetic origin, isolated or associated with other genetic syndromes, causing a fibrosis of the gingival tissue). The 7-year-follow-up treatment highlights the importance of a close collaboration between the periodontist and the orthodontist, the necessity of a periodic therapeutic follow-up and underlines the problems due to recurrences after surgical procedures such as the excision of excess gingival tissue.

INTRODUCTION

La fibromatose gingivale héréditaire (FGH) est une maladie gingivale d'origine génétique à type de fibrose. Sa prévalence de 1 pour 175 000 la définit comme une maladie gingivale rare (Coletta et coll., 2006). Elle se caractérise par une hypertrophie gingivale, ferme, non douloureuse, non hémorragique, bénigne et d'installation progressive (Hart et coll., 1998 ; Dridi et coll., 2013 ; Orphanet). La FGH peut être décrite isolée (non syndromique) ou associée à des syndromes génétiques (de Zimmerman-Laband, de Cross, de Jones, de Ruthefurd...). Le mode de transmission de la FGH est principalement autosomique dominante avec une pénétrance le plus souvent incomplète et une expressivité variable. Cependant, certains auteurs rapportent aussi la possibilité d'une transmission autosomique récessive notamment dans les formes syndromiques (Martelli-Junior, 2005 ; Nibali et coll., 2012). Les études génétiques montrent que la FGH présente une hétérogénéité des loci et semble impliquer plusieurs gènes. À ce jour, seule une mutation sur le gène *SOS1* (Son of Sevenless-1) situé sur le bras court du chromosome 2 est réellement identifiée. En effet, une mutation du gène *SOS1* serait responsable d'une activation et d'une augmentation du nombre de fibroblastes gingivaux et de myofibroblastes via l'action de facteurs de croissance TGF- β 1 et CTGF, d'une production accrue de collagène dans la matrice extracellulaire et d'une diminution de l'activité des métalloprotéases matricielles, aboutissant à une quantité excessive de la matrice extracellulaire dans le chorion gingival qui se manifeste cliniquement par une hypertrophie gingivale (Coletta et Graner, 2006).

DÉMARCHE DIAGNOSTIQUE

Melle V, âgée de 12 ans se présente à la consultation de parodontologie de l'hôpital Louis Mourier à Colombes en mai 2008 adressée par son orthodontiste pour une hypertrophie gingivale compliquant la poursuite du plan de traitement orthodontique, notamment le recul et l'ingression des secteurs antérieurs (fig. 1).

INTRODUCTION

*Hereditary gingival fibromatosis (HGF) is a gingival disease of genetic origin, type fibrosis. Estimated at 1 per 175.000, its prevalence defines it as a rare gingival disease (Coletta et al., 2006). It is characterized by a gingival enlargement, which is firm, not painful nor hemorrhagic, benign and progressive (Hart et al., 1998; Dridi et al., 2013; Orphanet). HGF may be isolated (non-syndromic) or associated with genetic syndromes (such as Zimmerman-Laband, Cross, Jones, Ruthefurd). HGF is mainly transmitted in an autosomal dominant pattern with generally an incomplete penetrance and a variable expressivity. However, a few authors also report a possible autosomal recessive inheritance particularly in the syndromic forms of the disease (Martelli-Junior, 2005; Nibali et al., 2012). Genetic studies show that HGF presents a loci heterogeneity and seems to involve several genes. Until now, only one mutation on the gene *SOS1* (Son of Sevenless-1) situated on the short arm of the chromosome 2 has actually been identified. Indeed, a mutation of the gene *SOS1* would activate and increase the number of gingival fibroblasts and myofibroblasts through the action of TGF- β 1 and CTGF growth factors, would also increase the production of collagen in the extracellular matrix and reduce the activity of the matrix metalloproteinases, resulting in an excessive quantity of the extracellular matrix in the gingival chorion membrane which is clinically visible by a gingival overgrowth (Coletta and Graner, 2006).*

DIAGNOSTIC APPROACH

In May 2008, Ms V., a 12-year-old patient, comes to the consultation of periodontology at the hospital Louis Mourier in Colombes, referred by her orthodontist for a gingival overgrowth complicating the orthodontic treatment plan, in particular the backward movement and the intrusion of the anterior sectors (fig. 1).



Fig. 1. Vue vestibulaire de la situation initiale.

Fig. 1. Buccal view of the initial situation.

Face à un tableau clinique d'hypertrophie gingivale plusieurs diagnostics différentiels sont envisageables. En effet, l'hypertrophie gingivale peut être d'origine inflammatoire, médicamenteuse, liée à des troubles hormonaux ou nutritionnels mais encore être le reflet d'une hémopathie, d'affections systémiques (maladie de Crohn ou granulomatose de Wegener) ou d'une fibromatose gingivale héréditaire.

L'anamnèse médicale, familiale, l'examen clinique extra et intra oral et les examens complémentaires devront être orientés pour éliminer les étiologies une par une pour ne retenir qu'un seul diagnostic positif.

À L'ANAMNÈSE MÉDICALE, la patiente ne présente pas d'antécédent médico-chirurgical, elle ne fume pas. Elle ne prend aucun traitement anti-épileptique, anti-hypertenseur ou immunosuppresseur impliqués dans les hypertrophies gingivales. Elle n'a pas encore à cette période-là ses menstruations, elles apparaîtront qu'un 1 an plus tard.

L'enquête familiale révèle que le père a présenté un tableau clinique très semblable dans l'enfance avec une hypertrophie gingivale généralisée recouvrant une partie des couronnes des dents définitives. Ces hypertrophies compliquaient le bon contrôle de plaque et s'accompagnaient d'abcès parodontaux récidivants.

À l'âge de 19 ans, il a subi des gingivectomies réalisées par quadrant et depuis la situation clinique s'est stabilisée. En 2014, le père âgé de 59 ans est venu accompagner sa fille et nous avons pu à cette occasion réaliser une observation clinique. L'état parodontal du père montre une gencive attachée très fibreuse, rose claire avec un piqueté en peau d'orange bien marqué, la hauteur et l'épaisseur de tissu kératinisé sont très importantes formant ainsi des « bourrelets gingivaux » généralisés. Aucune prédisposition aux maladies parodontales autre que les antécédents paternels d'hypertrophie gingivale n'est à rapporter (fig. 2).

When a gingival overgrowth is clinically visible, several differential diagnoses are possible. Indeed, gingival enlargement may be due to an inflammation or be drug-induced, caused by hormonal or nutritional disorders or be the sign of hemopathy, systematic affections (Crohn's disease or Wegener's granulomatosis) or of a hereditary gingival fibromatosis.

The family medical anamnesis, the clinical extra- and intra-oral examination and the additional examinations must be taken into account in order to eliminate etiologies one by one and retain only one single positive diagnosis.

CONCERNING THE MEDICAL ANAMNESIS, the patient does not present any medical or surgical history; she does not smoke. She takes no anti-epileptic, antihypertensive or immunosuppressive treatment involved in gingival enlargements. At the time, she did not have her periods yet, they will start 1 year later.

The family investigation reveals that the father presented a very similar clinical picture during his childhood with a generalized gingival overgrowth partly covering the crowns of the permanent teeth. This overgrowth complicated the proper control of plaque and came along with recurrent periodontal abscesses. At the age of 19, gingivectomies were performed per quadrant and the clinical situation has been stable since then. In 2014, the 59-year-old father came to the consultation with his daughter and we were able to carry out a clinical observation. The father's periodontal state shows an attached gingiva that is very fibrous, light pink with pronounced stippling surface; the height and the thickness of the keratinized tissue are considerable, creating thus generalized "gingival bulks". No predisposition to periodontal diseases other than the father's history of gingival overgrowth is reported (fig. 2).



Fig. 2. Vue vestibulaire de Mr V.

Fig. 2. Buccal view of Mr V, her father.

L'**ANAMNÈSE DENTAIRE** de la patiente révèle une chute sur un trottoir à l'âge de 9 ans qui a provoquée l'expulsion de 22 et la fracture amélo-dentinaire de 21 sans exposition pulpaire. Aucune restauration n'a été réalisée. En 2012, un composite stratifié sera réalisé à l'aide d'un mock-up, clef en silicone et composite Miris®2.

En 2008, elle consulte un orthodontiste pour traiter ses malocclusions. Dans son plan de traitement, l'extraction de 12 est réalisée afin de positionner les canines en place des latérales. Le traitement orthodontique est commencé d'abord au maxillaire puis 6 mois après à la mandibule.

L'**EXAMEN EXTRA ORAL** est ici très important et doit se faire de façon minutieuse car la fibromatose gingivale héréditaire est le plus souvent isolée mais peut être aussi associée à de nombreux syndromes génétiques. Il faut donc rechercher les différents signes cliniques présents dans ces syndromes. [DeAngelo et coll., 2007; Coletta, et Graner, 2006] (**tableau 1**). En dehors de ces syndromes, on retrouve aussi la FGH associée le plus souvent à l'hypertrichose mais aussi à de légers retards mentaux, épilepsie, anomalies des doigts et orteils.

Dans le cas de la patiente, l'examen extra-oral montre une tendance à l'hyperpilosité, des lèvres épaisses, un sourire gingival, une respiration buccale, une croissance est à + 2.2 déviation standard et aucun retard mental ni d'antécédent épileptique.

SUR LE PLAN PARODONTAL, la patiente présente une hypertrophie gingivale généralisée sévère (recouvrant plus des 2/3 des couronnes dentaires) au maxillaire et à la mandibule en vestibulaire et palatin. Cette hypertrophie concerne la gencive marginale, papillaire et attachée mais respecte la ligne muco-gingivale. Elle forme des « bourrelets gingivaux » rosés, fermes, non douloureux, non hémorragiques, adhérents avec présence de l'aspect piqueté. La présence de poches gingivales et l'appareil orthodontique compliquent les mesures d'hygiène bucco-dentaire d'où la présence d'une inflammation marginale légère au niveau des secteurs antérieurs. Le tableau clinique de cette hypertrophie gingivale ne correspond pas à une origine inflammatoire (gencive œdématisée, érythémateuse, molle avec des saignements au sondage) (**fig. 3**).

SUR LE PLAN DENTAIRE, outre l'absence des 12 et 22 (expulsée et extraite), on note l'absence de 13 sur l'arcade (sous muqueuse). La 23 est en cours d'éruption en vestibulo-position. Il n'y a aucune lésion carieuse ni restauration.

Sur le plan occluso-fonctionnel, la patiente présente une classe II division 1 d'Angle et un surplomb d'environ 1 cm.

EXAMENS COMPLÉMENTAIRES

L'examen radiologique montre l'absence d'anomalie dentaire de type amélogénèse imparfaite, aucune parodontite agressive, aucun processus ostéolytique. Ces pathologies ont déjà été décrites dans certaines formes de FGH, il est donc essentiel de les rechercher [Casavecchia et coll., 2004 ; Nibali et coll., 2012] (**fig. 4**).

THE PATIENT'S DENTAL ANAMNESIS reveals she fell on the sidewalk when she was 9 which caused the eviction of 22 and the enamel-dentin fracture of 21 with no pulp exposure. No restoration was performed. In 2012, a laminated composite veneer was made with a mock-up, a silicone key and Miris®2 composite.

In 2008, she consulted an orthodontist to handle her malocclusions. According to the treatment plan, 12 was extracted in order to place the canines in the position of the lateral incisors. The orthodontic treatment started first in the maxillary and carried on 6 months later in the mandible.

THE EXTRAORAL EXAMINATION matters a lot in this case and must be meticulously performed because hereditary gingival fibromatosis is generally isolated but it may also be associated with numerous genetic syndromes. It is thus necessary to look for the various clinical signs of these syndromes. [DeAngelo et al., 2007; Coletta and Graner, 2006] (picture 1). Apart from these syndromes, HGF is generally associated with hypertrichosis but also with mild mental retardation, epilepsy, anomalies of fingers and toes.

In this specific case, the extraoral examination shows a tendency to hyperpilosity, thick lips, a gummy smile, mouth breathing, a growth at +2.2 SD, and no mental retardation or epileptic history.

ON THE PERIODONTAL LEVEL, the patient suffers from a severe generalized gingival overgrowth (covering more than 2/3 of the dental crowns) in the maxillary and the mandible, as well as buccal and lingual. The overgrowth affects both marginal and attached gingiva but preserves the mucogingival line. It creates "gingival bulks" that are pinkish, firm, neither painful nor hemorrhagic, adherent with a dimpled aspect. Some gingival pockets and the orthodontic device complicate the oral hygiene procedures, hence the presence of a mild marginal inflammation in the anterior sectors. The clinical picture of this gingival enlargement does not relate to an inflammatory origin (soft, oedematous, erythematous gingiva, with bleeding on probing) (fig. 3).

ON THE DENTAL LEVEL, besides the absence 12 and 22 (avulsed and extracted), we can notice the absence of 13 on the arch (under the alveolar mucosa). 23 is erupting in a buccal position. There is no carious lesion or restoration.

On the occlusal level, the patient presents an Angle's class II division 1 and an overjet of about 1 cm.

ADDITIONAL EXAMINATIONS

The radiological examination shows the absence of dental anomalies such as amelogenesis imperfecta, no aggressive periodontitis, no osteolytic lesion. These pathologies have already been described in certain forms of HGF, it is thus essential to track them down [Casavecchia et al., 2004; Nibali et al., 2012] (fig. 4).

TABLEAU 1 – TABLE 1

Syndromes associés à la FGH et leurs signes cliniques (Coletta et Graner 2006).

Syndromes associated to HGF and their clinical signs (from Coletta et Graner 2006).

SIGNES CLINIQUES AUTRE QUE LA FIBROMATOSE GINGIVALE <i>CLINICAL SIGNS OTHER THAN GINGIVAL FIBROMATOSIS</i>	SYNDROMES <i>SYNDROMES</i>
Hypertrichose, retard mental <i>Hypertrichosis, mental retardation</i>	Fibromatose gingivale avec hypertrichose <i>Gingival fibromatosis with hypertrichosis</i>
Dysmorphie faciale (nez bulbeux, lèvres épaisses, grandes oreilles aux lobes épais), hyperextensibilité des petites articulations, hypertrichose, surdité, hépatosplénomégalie. <i>Facial dysmorphism (bulbous nose, thick lips, big ears with thick lobes), joint hyperextensibility, hypertrichosis, hearing loss, hepatosplenomegaly.</i>	Zimmermann-Laband <i>Zimmermann-Laband</i>
Fibromes hyalins sous cutanés multiples, contractures musculaires des extrémités, tumeurs filamenteuses de la peau, multiples destructions osseuses de type ostéolytique. <i>Multiple hyalin fibromas, muscular cramps of the extremities, filamentous skin tumors, multiple osteolytic lesions.</i>	Murray-Puretic-Drescher (fibromatose hyaline juvénile) <i>Murray-Puretic-Drescher (juvenile hyalin fibromatosis)</i>
Dystrophie cornéenne, retard d'éruption dentaire. <i>Corneal opacities and retarded tooth eruption.</i>	Rutherford <i>Rutherford</i>
Chérubinisme, hypertrichose, épilepsie, retard mental, retard de croissance, troubles oculaires. <i>Cherubism, hypertrichosis, epilepsy, mental deficiency, stunted growth, ocular abnormalities.</i>	Ramon <i>Ramon</i>
Hypopigmentation, retard mental, microphthalmie, athétose. <i>Hypopigmentation, mental retardation, microphthalmia, athetosis.</i>	Cross <i>Cross</i>
Surdité progressive. <i>Progressive deafness.</i>	Jones <i>Jones</i>
Aplasie des muscles de la paroi abdominale avec des anomalies obstructives basses du tractus urinaire, cryptorchidie. <i>Absence of abdominal muscles, abnormalities of urinary tract, cryptorchidism.</i>	Prune-belly <i>Prune-belly</i>

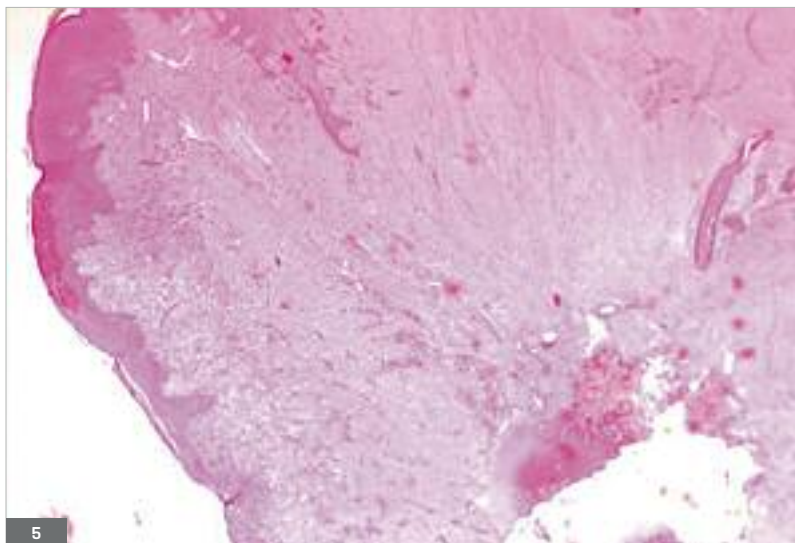
**Fig. 3.** Vue vestibulaire initiale en juin 2008.*Fig. 3.* Initial buccal view in June, 2008.**Fig. 4.** Radiographie panoramique initiale.*Fig. 4.* Initial panoramic X-ray.

L'hypertrophie gingivale peut être le reflet d'une leucémie ou être liée à des troubles hormonaux. Ainsi pour discriminer ces causes, une NFS ainsi qu'un bilan hormonal ont été prescrits : dosage des hormones thyroïdiennes (TSH, T3L, T4L), parathyroïdiennes (parathormone), hormone de croissance (somatotropine), cortisol et prolactine. Les résultats obtenus concluent à aucun signe d'hyperproduction endocrinienne et à aucune anomalie de la formule sanguine. Ainsi les diagnostics différentiels avec une hémopathie ou des troubles hormonaux ont été écartés.

DIAGNOSTIC

L'anamnèse médicale et familiale ainsi que l'examen clinique et les examens complémentaires ont permis d'exclure une origine médicamenteuse, inflammatoire et systémique ne retenant ainsi qu'un seul diagnostic celui de la fibromatose gingivale héréditaire généralisée sévère non syndromique.

Ce diagnostic est soutenu par l'analyse anatomo-pathologique réalisé lors d'un traitement parodontal chirurgical. Elle décrit un épithélium malpighien d'épaisseur normale, parfois un peu hyperplasique, localement érodé, sous lequel on note un chorion considérablement épaissi, peu cellulaire, fibreux avec une fibrose orientée en tous sens, localement quelques plasmocytes et une ossification métaplasique sont observés. L'analyse conclue à une histologie compatible avec une fibromatose gingivale héréditaire (**fig. 5**).



Gingival overgrowth may be a sign for leukaemia or be connected to hormonal disorders. In order to discriminate these potential causes, a complete blood count as well as a hormone check-up were prescribed: dosage of thyroid hormones (TSH, T3L, T4L), parathyroid hormones (parathormone), growth hormone (somatotropin), cortisol and prolactin. The results showed no sign of endocrine overproduction and no anomaly in the blood count. Consequently, the differential diagnoses of hemopathy and hormonal disorders were eliminated.

DIAGNOSIS

The medical and family anamnesis as well as the clinical examination and the additional examinations allowed to exclude a drug-induced, inflammatory and systematic origin and focus on a single diagnosis: a severe non syndromic generalized hereditary gingival fibromatosis.

*This diagnosis is confirmed by the anatomopathological analysis performed during a surgical periodontal treatment. It describes a malpighian epithelium with standard thickness, slightly hyperplasic in some places, locally eroded, under which we can see a considerably thickened, barely cellular, fibrous chorion with fibrosis in all directions; some plasmocytes and a metaplastic ossification are locally observed. The analysis provides a compatible histology with hereditary gingival fibromatosis (**fig. 5**).*

Fig. 5. Faible grossissement. Coloration à l'hémalum-éosine de la pièce d'exérèse. On observe un épaississement diffus du chorion par une fibrose dense très peu inflammatoire refoulant l'épithélium de surface.

Fig. 5. Low magnification. Staining of the resection specimen with H&E.

We can observe a diffuse thickening of the chorion due to a mildly inflammatory dense fibrosis repressing the surface epithelium.

PRISE EN CHARGE

Le traitement chirurgical parodontal répond à plusieurs objectifs :

- Permettre la réalisation du plan de traitement orthodontique.
- Assurer une prévention des risques carieux et parodontaux par la suppression des pseudo-poches gingivales.
- Améliorer l'esthétique.

TREATMENT

The periodontal surgical treatment must achieve several objectives:

- Allow to perform the orthodontic treatment plan.
- Prevent the carious and periodontal risks by eliminating the gingival pseudopockets.
- Improve the aesthetics.

L'étroite collaboration avec l'orthodontiste est indispensable pour mener à bien ce traitement puisque qu'il va guider dans le temps les séquences chirurgicales. Ce traitement consiste à réaliser secteur par secteur des gingivectomies à biseau interne associées ou non à des lambeaux. Des séances de suivi thérapeutique très régulières, tous les 2 à 3 mois, sont ensuite programmées pour contrôler les résultats.

Au préalable un enseignement à l'hygiène orale est réalisé. Il est clairement exposé à la patiente que le bon déroulement des traitements orthodontique et parodontal ne peuvent se faire sans sa coopération et sa rigueur de brossage.

Après réévaluation, la thérapeutique chirurgicale peut être envisagée.

Une première chirurgie parodontale est réalisée dans le secteur antérieur pour répondre à la demande de l'orthodontiste : le dégagement de la 13 positionnée en sous muqueuse est associé à l'allongement des couronnes cliniques des 11 et 21 par lambeau déplacé apicalement en vestibulaire, et une gingivectomie en palatin de 11 et 21 (fig. 6a, b, c).

A close collaboration with the orthodontist is essential to successfully perform the treatment because it is going to guide in time the different surgical sequences. This treatment consists in performing sector by sector internal bevel gingivectomies associated or not with flaps. Very regular therapeutic follow-up sessions are scheduled every 2 to 3 months to control the results. Before starting, oral hygiene procedures are taught to the patient. It is clearly explained that the orthodontic and periodontal treatments cannot succeed without her cooperation and rigorous tooth brushing.

After reassessment, the surgical procedure can be start. A first periodontal surgery is performed in the anterior sector to meet the orthodontist's request: positioned under the alveolar mucosa, 13 is released and the clinical crowns of 11 and 21 are extended with an apically positioned flap in buccal, as well as a gingivectomy palatal to 11 and 21 (fig. 6a, b, c).



Fig. 6. Dégagement chirurgical de 13 et allongement coronaire de 11 et 21 – Vue pré-opératoire (a) et à 3 semaines post-opératoires (b et c).

Fig. 6. Surgical procedure of 13 and coronal extension of 11 and 21 – Preoperative view (a) and post-operative views after 3 weeks (b and c).

Puis des allongements coronaires des secteurs prémolaires maxillaires sont réalisés pour mettre les niveaux gingivaux à distances des attaches orthodontiques. Des récurrences ont été observées dès les 3 premiers mois post-opératoires (fig. 7).

En novembre 2009, l'orthodontiste souhaite positionner des multi attaches à la mandibule, une exérèse gingivale est réalisée par gingivectomie associée à un lambeau au niveau du secteur antérieur mandibulaire (fig. 8a, b).

Coronal extensions of maxillary premolars sectors are then made to put the gingival levels at a distance from the orthodontic attachments. Recurrences were observed in the first 3 post-operative months (fig. 7).

In November 2009, the orthodontist wishes to position multiple attachments to the mandible, a gingival excision is performed by gingivectomy associated with a flap in the mandibular anterior sector (fig. 8a, b).



Fig. 7. Vue occluso-palatine à 1 mois post-opératoire du secteur 1.

Fig. 7. Occlusal palatal view of the sector 1 one month after surgery.

Fig. 8. Vues initiale (a) et à 2 semaines (b) du secteur antérieur mandibulaire.

Fig. 8. Initial view (a) and view after 2 weeks (b) of the anterior mandibular sector.



Du fait des récurrences observées, il a été décidé de mettre en place des séances de suivi thérapeutique tous les 2 à 3 mois afin d'éviter de multiplier des chirurgies parodontales chez cette jeune patiente et d'attendre la fin du traitement orthodontique. Les séances consistaient en une réévaluation des facteurs aggravants (dépôts de plaque sous gingivaux favorisant la réaction gingivale en présence d'orthodontie et l'inflammation gingivale), du risque carieux, d'une surveillance de l'hypertrophie à la recherche de récurrence ou de stabilisation de la maladie gingivale et en un débridement ultrasonique (fig. 9a, b, c, d).

Because of recurrences, it was decided to set up therapeutic follow-up sessions every 2 to 3 months to avoid multiplying periodontal surgeries in this young patient and wait until the end of the orthodontic treatment. The sessions consisted in a re-evaluation of the aggravating factors (subgingival plaque formation favoring the gingival reaction in the presence of orthodontics as well as gingival inflammation), of the carious risk and in a surveillance of overgrowth, tracking a potential recurrence or looking for a stabilization of the gingival disease and finally in an ultrasonic debridement (fig. 9a, b, c, d).



Fig. 9. Vues en mars 2011 : 2 semaines après dépose des multi attaches (**a, b, c, d**). Persistance des pseudo-poches vestibulaires et palatines avec une papille palatine au regard de 13 très inflammatoire. « Bourrelets gingivaux » toujours très marqués dans les secteurs latéraux. Diminution de la hauteur clinique des couronnes dentaires.

*Fig. 9. View in March, 2011: 2 weeks after removal of the multi-attachments (**a, b, c, d**). The buccal and palatal pseudopockets are still here with a very inflamed papilla opposite 13. Gingival bulks are still very marked in the lateral sectors. The clinical height of the dental crowns is smaller.*

En décembre 2013, la récurrence de l'hypertrophie mandibulaire (4 ans après la première intervention) alors que l'appareillage orthodontique a été déposé nous incite à réaliser une nouvelle chirurgie (gingivectomie à biseau interne + levée d'un lambeau vestibulaire) pour remodeler la gencive à des fins esthétiques et préventives (**fig. 10a, b, c, d, e et 11a, b**).

*In December 2013, the recurrence of the mandibular gingival overgrowth (4 years after the first surgery) while the orthodontic device had been removed incites us to perform a new surgery (internal bevel gingivectomy + buccal flap) to remodel the gingiva in aesthetic and preventive purposes (**fig. 10a, b, c, d, e and 11a, b**).*





Fig. 10. Vue vestibulaire mandibulaire pré-opératoire **(a)**. Mesure à la sonde de la profondeur des poches gingivales **(b)**. Report vestibulaire de la mesure pour définir le point le plus apical de la gingivectomie **(c)**. Incisions paraboliques, paramarginales et incisions intrasulculaires **(d)**. Sutures du lambeau avec des points simples, fil tressé 4.0 **(e)**.

Fig. 10. Preoperative mandibular buccal view **(a)**. Probe measurement of the depth of the gingival pockets **(b)**. Buccal transfer of the measure to determine the most apical point of the gingivectomy **(c)**. Parabolic and paramarginal incisions and intrasulcus incisions **(d)**. Suture of the flap with simple stitches, braided suture 4.0 **(e)**.



Fig. 11. Secteur antérieur mandibulaire. Vue préopératoire **(a)**. Contrôle à 15 mois avec une bonne stabilité de la situation clinique **(b)**.

Fig. 11. Mandibular anterior sector. Preoperative view **(a)**. Control 15 months later with a good stability of the clinical situation **(b)**.

L'orthodontiste ayant achevé son traitement en mai 2014, une dernière chirurgie parodontale du secteur maxillaire de 16 à 26 est alors proposée à la patiente. Les objectifs sont à la fois esthétiques et préventifs. D'un point de vue esthétique, on recherche à harmoniser au mieux les contours gingivaux et à désépaissir les bourrelets gingivaux. D'un point de vue préventif, cette chirurgie vise à prévenir les récurrences en créant un environnement muco-gingival compatible avec un bon contrôle de plaque sur le long terme (fig. 12a, b, c et 13a, b).

After the end of the orthodontic treatment in May 2014, a final periodontal surgery of the maxillary sector from 16 to 26 is proposed to the patient. The objectives are both aesthetic and preventive. Aesthetically, we are trying to harmonize the gingival contours and to trim the excess gingival tissue. From a preventive point of view, this surgery aims at preventing recurrences by creating a mucogingival environment that will be compatible with a proper plaque control in the long term. (fig. 12a, b, c and 13a, b).



Fig. 12. Vue vestibulaire pré-opératoire **(a)**. Post-opératoire immédiat **(b)**. Contrôle à 8 mois post-opératoires **(c)**.

Fig. 12. Buccal views: preoperative **(a)**, immediate post-operative **(b)**, post-operative check-up after 8 months **(c)**.



Fig. 13. Vues du sourire préopératoire **(a)** et à 2 mois **(b)**.

Fig. 13. Views of the preoperative smile **(a)** and after 2 months **(b)**.

DISCUSSION

La FGH malgré son caractère bénin (aucune répercussion autre qu'au niveau buccal, aucune lésion dermatologique associée) nécessite d'avoir recours à des thérapeutiques chirurgicales soustractives. En effet, ne pas traiter les FGH sévères expose les patients à de nombreuses complications possibles aussi bien esthétiques que fonctionnelles. Par la présence d'un tissu gingival très fibreux, la FGH peut créer un obstacle au déroulement physiologique de l'éruption entraînant un retard à l'éruption des dents définitives et le maintien anormal de la denture temporaire sur l'arcade. Par ailleurs, l'hypertrophie gingivale recouvrant les couronnes dentaires à des degrés plus ou moins importants peut entraîner des malocclusions (bécasses

DISCUSSION

In spite of its benign nature (no repercussion other than in the oral sphere, no associated dermatological lesion), HGF requires the use of subtractive surgical procedures. Indeed, if severe HGF is not handled, patients will suffer from many potential complications, both aesthetic and functional. As the gingival tissue is very fibrous, the HGF can be an obstacle to the physiological eruption process, delaying the eruption of permanent teeth and keeping the primary dentition on the arch. Besides, gingival overgrowth covering dental crowns in more or less significant degrees may generate malocclusions (anterior open bite, malpositions, rotations, diastemas),

antérieures, malpositions, rotations, diastèmes), entraver la compétence labiale, la phonation et la mastication. Enfin, la présence de pseudo-poches gingivales compromet les mesures d'hygiène, constitue un risque carieux élevé et est un facteur de risque local de la gingivite et de la parodontite. (Doufexi et coll., 2005 ; Coletta et Graner, 2006).

Cependant, le traitement de la FGH pose le problème du pronostic sur le long terme, le risque de récurrence étant imprévisible. La réalisation d'un repositionnement gingival à un niveau physiologique garantirait un meilleur pronostic. Il apparaît que lorsqu'un bon suivi thérapeutique est mis en place, la récurrence soit minime ou tardive (Coletta et Graner, 2006 ; DeAngelo et coll., 2007).

Par ailleurs, il semblerait que la récurrence soit plus fréquente chez les enfants et adolescents que chez les adultes, ce qui sous-entend qu'une meilleure stabilité de la situation clinique est obtenue en denture permanente. D'autres facteurs de récurrence sont à prendre en compte comme la présence de plaque dentaire, la respiration buccale ou la mise en place d'un traitement orthodontique qui semble activer le processus hypertrophique de la gencive (Kelekis-Cholakis, 2002). Ainsi, au vu du risque de récurrence, on peut se poser la question du moment idéal pour l'intervention chirurgicale. À cette question, il n'existe pas à l'heure actuelle de consensus. Il est cependant préférable de ne pas attendre les complications esthétiques, psychologiques et fonctionnelles liées à la FGH. Les bénéfices esthétiques et fonctionnels même temporaires du traitement chirurgical prévalent le plus souvent aux risques imprévisibles des récurrences. (Bittencourt et coll., 2000).

Dans le cas de cette patiente, c'est l'argument fonctionnel avec la correction de la malocclusion de classe II division I qui a guidé la décision de débuter le traitement orthodontique (malgré le risque d'aggravation de la fibromatose). Le traitement orthodontique corrige les malpositions dentaires facilitant ainsi le contrôle de plaque sur le long terme, permet de retrouver une compétence labiale et de ce fait prévient la respiration buccale, facteur aggravant de la FGH. La chirurgie parodontale par soustraction est dans ce cas indispensable pour assurer le bon déroulement du traitement orthodontique, en permettant la mise en place des appareils orthodontiques et en éliminant les excès gingivaux limitant les déplacements dentaires. Une fois le traitement orthodontique achevé, de nouvelles interventions chirurgicales ont été réalisées dans le but d'éliminer les pseudo-poches gingivales résiduelles. Par conséquent, la prévention des risques carieux et parodontaux est assurée et l'esthétique améliorée.

CONCLUSION

Face à un tableau clinique d'hypertrophie gingivale fibreuse sévère, l'anamnèse familiale et médicale, ainsi que l'examen clinique et les examens complémentaires ont permis de diagnostiquer une maladie gingivale rare, la fibromatose gingivale héréditaire. Le suivi à 7 ans de ce cas clinique illustre que malgré son caractère bénin, ses complications esthétiques,

prevent the labial competence, phonation and mastication. Finally, the presence of gingival pseudopockets compromises a proper oral hygiene, creates a high carious risk and is a local risk factor for gingivitis and periodontitis. (Doufexi et al., 2005; Coletta and Graner, 2006).

However, the long-term prognosis remains a real issue in the treatment of HGF since the recurrence risk is unpredictable. Proceeding to a gingival repositioning on a physiological level would surely provide a better prognosis. It seems that when a proper therapeutic follow-up is scheduled, recurrences are mild or appear later (Coletta and Graner, 2006; DeAngelo et al., 2007).

It also seems that recurrences are more frequent in children and teenagers than in adults, which implies that a better stability of the clinical situation can be achieved with permanent teeth. Other factors of recurrence need to be taken into account such as the presence of dental plaque, mouth breathing or orthodontic treatments which seem to activate the gingival hypertrophic process (Kelekis-Cholakis, 2002). Regarding the recurrence risk, we must wonder when the ideal moment to perform surgery might be. There is currently no consensus on the matter. It is however wiser not to wait for the aesthetic, psychological and functional complications due to HGF. Even temporary, the aesthetic and functional improvements of the surgical treatment generally prevail over the unpredictable risk of recurrences. (Bittencourt et al., 2000).

In this particular case, the functional argument with the correction of the malocclusion class II division I guided the decision to start the orthodontic treatment (in spite of the risk to aggravate the fibromatosis). The orthodontic treatment corrects the dental malpositions and thus facilitates a better plaque control in the long term; it allows to restore the labial competence, consequently preventing mouth breathing, an aggravating factor for HGF. In this case, the subtractive periodontal surgery is essential to provide the steady progress of the orthodontic treatment, allowing the placement of the orthodontic devices and eliminating the excess gingival tissue hindering the dental movements. Once the orthodontic treatment had been completed, new surgical procedures were performed in order to eliminate the residual gingival pseudopockets. Consequently, the carious and periodontal risks were prevented and the aesthetics was improved.

CONCLUSION

With a clinical picture of severe fibrous gingival overgrowth, the family and medical anamnesis, as well as the clinical and the additional examinations allowed to diagnose a rare gingival disease: hereditary gingival fibromatosis. The 7-year follow-up of this clinical case shows that, despite its benign nature, the aesthetic, functional and psychological complications of the

fonctionnelles et psychologiques ne sont pas négligeables et sa prise en charge n'en reste pas moins invasive comme l'ont démontré les nombreuses chirurgies parodontales. Le succès de la prise en charge réside dans la maîtrise des facteurs de récives et du suivi thérapeutique.

Demande de tirés-à-part :

Pr Marie-Laure Colombier

Faculté de Chirurgie Dentaire

1 rue M. Arnoux, 92120 Montrouge,

marie-laure.colombier@parisdescartes.fr

disease must not be neglected and its treatment remains rather invasive, as evidenced by the numerous periodontal surgeries. The success of the treatment lies in the control of the recurrence factors and the therapeutic follow-up.

Traduction : Marie Chabin

BIBLIOGRAPHIE

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): 415–418, 2000. Cat 3

CASAVECCHIA P., UZEL M.I., KANTARCI A., HASTURK H., DIBART S., HART T.C., TRACKMAN P.C., VAN DYKE, T.E. – Hereditary gingival fibromatosis associated with generalized aggressive periodontitis: a case report. J Periodontol. 75 (5): 770–778, 2004. Cat 4

COLETTA R.D., GRANER E. – Hereditary gingival fibromatosis: a systematic review. J Periodontol. 77 (5): 753–764, 2006. Cat 3

DEANGELO S., MURPHY J., CLAMAN L., KALMAR J., LEBLEBICIOGLU, B. – Hereditary gingival fibromatosis – a review. Compend Contin Educ Dent. 28 (3): 138–143, 2007. Cat 3

DOUFEXI A., MINA M., IOANNIDOU E. – Gingival overgrowth in children: epidemiology, pathogenesis, and complications. A literature review. J Periodontol. 76 (1): 3–10, 2005. Cat 3

DRIDI S.M., GAULTIER F., EJEIL A.L., MEYER J. – La gencive pathologique Collection Dermatologie buccale ID, Paris, 2013.

HART T.C., PALLOS D., BOWDEN D.W., BOLDYARD J., PETTENATI M.J., CORTELLI J.R. – Genetic linkage of hereditary gingival fibromatosis to chromosome 2p21. Am J Hum Genet. 62 (4): 876–883, 1998. Cat 4

KELEKIS-CHOLAKIS A., WILTSHIRE W.A., BIREK C. – Treatment and long-term follow-up of a patient with hereditary gingival fibromatosis: a case report. J Can Dent Assoc. 68 (5): 290–294, 2002. Cat 4

MARTELLI-JUNIOR H., LEMOS D.P., SILVA C.O., GRANER E., COLETTA R.D. (2005). – Hereditary gingival fibromatosis: report of a five-generation family using cellular proliferation analysis. J Periodontol. 76 (12): 2299–2305, 2005. Cat 4

NIBALI L., BRETT P.M., DONOS N., GRIFFITHS G.S. – Hereditary gingival hyperplasia associated with amelogenesis imperfecta: a case report. Quintessence Int. 43 (6): 483–489, 2012. Cat 4

ORPHANET. #135300. Fibromatosis. Gingival. 1. GINGF1. (Consulté le 27/07/2014) <http://omim.org/entry/135300>. Cat 3