

Pyostomatitis Vegetant: An Important Diagnostic in Oral Diseases (Two Case Reports)

Yasaman Sabaghzadegan¹, Fatemeh Owlia^{1*}, Ehsan Babaie Zarch¹

¹Department of Oral Diseases, Faculty of Dentistry, Yazd University of Medical Sciences, Yazd, Iran.

Abstract

Background and Objectives: Inflammatory bowel disease (IBD) is a term that refers to crohn's disease (CD) and ulcerative colitis (UC). Oral manifestations in this disease category precedes the onset of gastrointestinal symptoms. In many patients, intestinal symptoms may be minimal or remain undiagnosed. In this paper, two cases of Pyostomatitis vegetans have been investigated.

Case Report: The first case was a 29 year old man who was referred with complaints of diffuse oral lesions. According to the clinical diagnosis and oral lesions of the patient, he was referred to a gastroenterologist with possible diagnosis of ulcerative colitis. The second case was a 28 year old woman with painful gingival lesions who stated that she has been diagnosed with ulcerative colitis since three years ago and has not received appropriate treatment.

Keywords: Oral manifestations; Inflammatory bowel disease; Colitis ulcerative.

DOI: 10.29252/qums.13.10.46

***Corresponding Author:**
Fatemeh Owlia; Department of Oral Diseases, Faculty of Dentistry, Yazd University of Medical Sciences, Yazd, Iran.

Email:
dr.owlia@gmail.com

Received: 27 Apr, 2019
Accepted: 16 Nov, 2019

پیوستوماتیت وجتانت: چالش تشخیصی مهم در بیماری‌های دهان (گزارش دو مورد)

یاسمن صباغ‌زادگان^{id}، فاطمه اولیا^{id*}، احسان بابایی زارچ^{id}

چکیده

زمینه و هدف: بیماری التهابی روده، اصطلاحی است که شامل بیماری کرون و کولیت اولسراتیو می‌شود. درگیری دهانی در بیماری‌های التهابی روده، معمولاً مقدم بر شروع علائم گوارشی است. در بسیاری از بیماران، علائم روده‌ای ممکن است حداقل باشد یا بدون تشخیص باقی بماند. در این مقاله به بررسی دو مورد از پیوستوماتیت وجتانت پرداخته شده است.

معرفی مورد: مورد اول، آقای ۲۹ ساله‌ای است که با شکایت از زخم و ضایعات منتشر دهانی ارجاع شده بود و با توجه به تشخیص بالینی و ضایعات دهانی بیمار، با تشخیص احتمالی کولیت اولسراتیو به متخصص گوارش ارجاع شد.

مورد دوم، خانم ۲۸ ساله‌ای است با داشتن سابقه یک‌ماهه از ضایعات دردناک منتشر روی لثه‌ها که طبق اظهار وی از سه سال قبل برای وی تشخیص کولیت اولسراتیو داده شد، ولی درمان مناسب دریافت نکرده بود.

کلیدواژه‌ها: تظاهرات دهانی؛ بیماری التهابی روده؛ کولیت اولسراتیو.

گروه بیماری‌های دهان، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی یزد، یزد، ایران.

لطفاً به این مقاله به صورت زیر استناد نمایید:

Sabaghzadegan Y, Owlia F, Babaie E. Pyostomatitis vegetant: an important diagnostic in oral diseases: (Two Case Reports). Qom Univ Med Sci J 2019;13(10):46-52. [Full Text in Persian]

*نویسنده مسئول مکاتبات:

فاطمه اولیا؛ گروه بیماری‌های دهان، دانشکده دندانپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی یزد، یزد، ایران.

آدرس پست الکترونیکی:

dr.owlia@gmail.com

تاریخ دریافت: ۹۸/۲/۷

تاریخ پذیرش: ۹۸/۸/۲۵

مقدمه

بیماری التهابی روده شامل بیماری‌های کرون و کولیت اولسراتیو است. پاتوژنز این بیماری، به‌طور کامل مشخص نیست و علائم روده‌ای، غالب و بارز است، اما عوارض خارج روده‌ای، در برخی موارد می‌تواند مقدم بر ضایعات روده‌ای باشد یا اینکه از علائم تشدید بیماری تشخیص داده شود (۳-۱). شیوع این بیماری در کشورهای آسیایی در حال افزایش بوده و این روند نسبت به گذشته که در اروپا شیوع بیشتری داشته است، امروزه روند معکوس پیدا کرده که احتمالاً به‌علت تغییر سبک زندگی می‌باشد (۴،۱).

پیوستوماتیت وجتانت شامل تغییرات دهانی غیراختصاصی و غیرشایع است که به‌صورت یک التهاب چرکی در حفره دهان بروز می‌کند. این ضایعات دهانی به‌وسیله تغییرات جوانه‌ای بافت‌های عمقی و یا به‌صورت ضایعات پرولیفراتیو به شکل زخم و یا ضایعات چرکی مشخص می‌شوند (۵). درگیری دهان در این بیماری شامل: انواع مختلف ضایعات است که به شکل زخم‌های مخاطی، پیوستوماتیت وجتانت، پوسچول منتشر و ضایعات لیکنوئیدی می‌تواند بروز پیدا کند و شایع‌ترین نوع آن زخم‌های آفتی است. درگیری دهانی در این بیماری معمولاً مقدم بر شروع علائم گوارشی است. در بسیاری از بیماران، علائم روده‌ای ممکن است حداقل باشد یا بدون تشخیص باقی بماند. بیشتر پزشکان معتقدند در همه بیماران مشکوک به بیماری التهابی روده، روده‌ها باید حتی در غیاب علائم اختصاصی تحت بررسی قرار گیرند. به‌طور معمول شدت گرفتن ضایعات دهانی، به‌موازات فعالیت این بیماری است؛ بنابراین تظاهرات دهانی، مارکر مناسبی برای عود روده‌ای می‌تواند به‌علت سوء تغذیه، اسهال مزمن و عوارض داروها رخ دهد. اگرچه ضایعات معمولاً در زمان فعالیت بیماری شدیدتر است، ولی ارتباط آن مشخص نیست و گفته می‌شود در ۳۰٪ بیماران، به‌خصوص در کودکان ممکن است علی‌رغم کنترل بیماری، تظاهرات دهانی ادامه یابد (۱۰، ۱۱). لته افراد نیز در کرون ممکن است ادماتوز، گرانولر و هایپریلاستیک با یا بدون زخم باشد و امکان درگیری کل لته تا محل اتصال موکو جینجیوال وجود دارد (۱۲، ۱۳).

از آنجایی که درگیری دهانی در بیماران مبتلا به بیماری التهابی روده شایع بوده و اغلب اوقات، نشانه‌ای از عود بیماری یا شدت گرفتن آن است، همچنین با توجه به شیوع بالای بیماری گوارشی در ایران و الگوهای رژیم غذایی خاص، شناخت این ضایعات جهت تشخیص مراحل اولیه بیماری یا شدت گرفتن وضعیت از قبل شناخته‌شده، از اهمیت به‌سزایی برخوردار است که می‌تواند برای پزشکان و دندانپزشکان سودمند باشد. در این مقاله دو مورد از موارد پیوستوماتیت وجتانت که به‌واسطه ضایعه دهانی، تشخیص کولیت اولسراتیو برای آن داده شده بود، مورد بررسی قرار گرفت.

معرفی مورد

مورد اول، آقای ۲۹ ساله‌ای است که با شکایت از زخم و سوزش دهان توسط متخصص پوست، به بخش بیماری‌های دهان، فک و صورت دانشکده دندانپزشکی یزد در آبان‌ماه سال ۱۳۹۷ ارجاع داده شده بود. بیمار از سه ماه قبل ضایعات دهانی داشت که ابعاد آن طی این سه ماه کاهش یافته بود. در این مدت، بیمار مراجعات مکرر به پزشک عمومی، متخصص روماتولوژی و پوست داشت که پس از دریافت درمان‌های مختلف؛ از قبیل دهان‌شویه تسکینی و ضد قارچ، بهبودی چندانی حاصل نشده بود.

در معاینه خارج دهانی، بیمار رنگ پریده به‌نظر می‌رسید و در معاینه داخل دهانی، زخم‌های منتشر در مخاط کراتینیزه و غیرکراتینیزه با غشای سودوممبران و حاشیه اریتماتوز دیده می‌شد (شکل شماره ۱). شغل بیمار کشاورزی بود و مورد خاصی در سابقه اجتماعی وی مانند تدخین سیگار یا الکل دیده نشد.

در ارزیابی، بیمار سابقه مبهمی از مشکلات گوارشی نظیر دردهای شکمی، سابقه اسهال متناوب و دفع خون داشت.

نتایج آزمایشگاهی بیمار به شرح زیر می‌باشد:

Hb: 9.9/RBC: 4.9/MCV: 73.5/MCH: 20.3/MCHC: 27.6/HCT: 35.8

با توجه به علائم بالینی و ضایعات دهانی، همچنین نتیجه بیوپسی ضایعه دهانی و تشخیص نهایی، بیمار به متخصص گوارش جهت کولونوسکوپی و بیوپسی از کولون معرفی شد و تشخیص کولیت اولسراتیو تأیید گردید.

و ۵۰۰۰۰ واحد ویتامین D (هفته‌ای یک عدد)، بهبودی کامل یافت و وضعیت بیمار پایدار شد.

بعد از تأیید تشخیص و شروع درمان مربوطه، ضایعات دهانی بیمار بعد از ۲ ماه مصرف داروهای مزالازین (آساکول ۵۰۰ میلی گرم)، دو بار در روز، ۵۰ میلی گرم پردنیزولون (روزی یک عدد)



شکل شماره ۱: پیوستوماتیت و جتانت و پوستول‌های سطحی در برخی نواحی نمای Snail track.

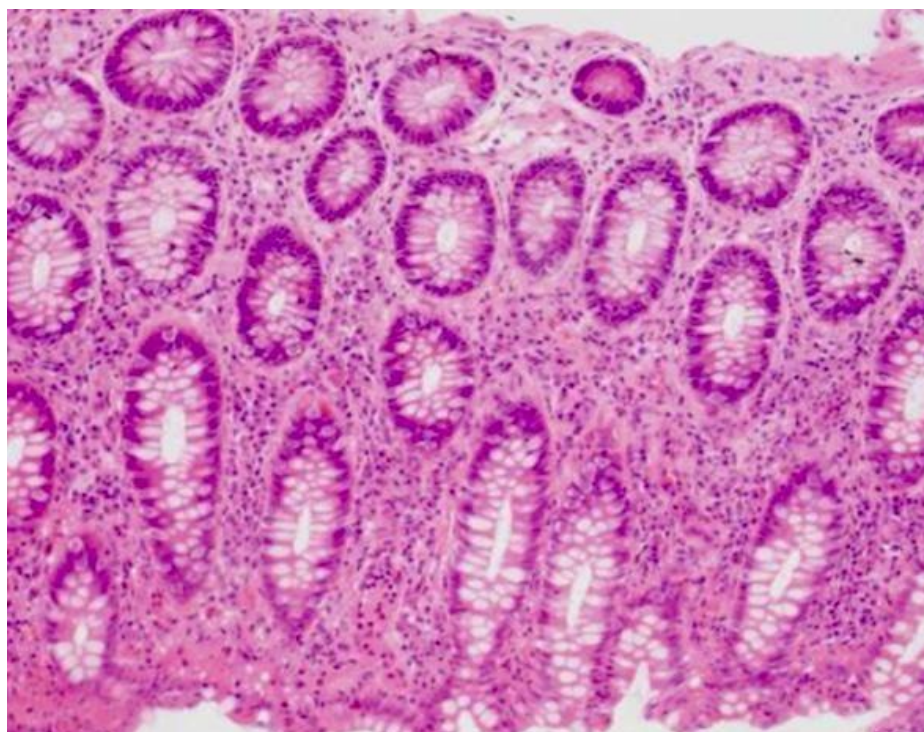
نمای پیوستوماتیت و جتانت مشاهده گردید. در نمای میکروسکوپی بیوپسی به عمل آمده از ضایعات دهانی، هایپرپلازی اپیدرمال و میکروآبسه‌های نوتروفیلی داخل اپی‌تلیالی و در بعضی نواحی، انفیلتراسیون ائوزینوفیلی و کراتینوسیت‌های آکانتولیتیک، قابل رؤیت بود (شکل شماره ۳). با ارجاع بیمار به فوق تخصص گوارش و تأیید عود بیماری کولیت اولسراتیو، بیمار مجدداً تحت درمان با داروهای پردنیزولون ۵ میلی گرم (روزانه یک عدد) و مزالازین ۵۰۰ میلی گرم (روزی یک عدد) قرار گرفت و پس از سه ماه پیگیری بیمار، ضایعات دهانی وی بعد از کنترل شدن وضعیت بیماری بهبود یافت.

مورد دوم خانم ۲۸ ساله‌ای است که با سابقه یک‌ماهه از ضایعات دردناک منتشر بر روی لثه‌ها، به کلینیک تخصصی بیماری‌های دهان مراجعه کرده بود (شکل شماره ۲). بیمار اظهار داشت سه سال پیش، تشخیص کولیت اولسراتیو برای وی داده شده و برای مدتی تحت درمان با پردنیزولون ۵ میلی گرم (روزانه دو عدد) و مزالازین ۵۰۰ میلی گرم (روزی یک عدد) بوده که بعد از ۲ سال به دلیل بروز عوارض دارویی، درمان را رها کرده بود.

در بررسی کلی بیمار، علائمی همچون رنگ‌پریدگی پوست، مخاط و گاه‌گاه‌های سابقه درد‌های گوارشی و اسهال وجود داشت. در ناحیه داخل دهانی و لثه‌ها نیز ضایعات ماکولوپاولر منتشر به رنگ سفید تا زرد و ضایعه برجسته در ناحیه وستیبول فک پایین با



شکل شماره ۲: الف و ب) پوستول‌های به هم متصل با نمای مشخصه Snail track روی لثه، ج و د) ضایعات پیوستوماتیت: عودکننده در نتیجه قطع دارو.



شکل شماره ۳: تصویر لام تهیه شده با هایپرپلازی اپیدرمال، میکروآبسه‌های نوتروفیلی داخل اپی تلیالی و در بعضی نواحی اینفیلتراسیون انوزینوفیلی و کراتینوسیت‌های آکانتولیتیک.

بحث

با توجه به شیوع بالای بیماری گوارشی در ایران، الگوهای رژیم غذایی خاص و احتمال ناشناخته ماندن این بیماری، می‌توان در بیماران مبتلا به زخم‌های دهانی منتشر با چنین نمایی، پس از رد سایر عوامل با بررسی‌های لازم توسط متخصص گوارش، اقدام به غربالگری بیماری‌های التهابی روده کرد، سپس در صورت لزوم با انجام کولونوسکوپی و بیوپسی روده به تشخیص قطعی رسید (۲۱،۲۰).

امروزه، به علت مراجعه زودهنگام بیماران با مشکل گوارشی، به ندرت نمای پیوستوماتیت و جتانت در دهان بیماران مشاهده می‌شود؛ لذا نه تنها به خودی خود تشخیص بالینی این نما می‌تواند برای پزشکان متخصص و دندانپزشکان جالب باشد؛ بلکه ارجاع به موقع بیمار نیز تأثیر به‌سزایی در روند بیماری وی دارد که در بسیاری موارد مانند دو مورد گزارش شده حاضر، حاکی از شدت گرفتن روند بیماری تحت درمان یا عود یک بیماری خاموش است.

نتیجه‌گیری

با توجه به اینکه علائم داخل دهانی بیماری التهابی روده، علامت مهمی در تشخیص این بیماری است؛ لذا توصیه می‌گردد علائم دهانی در بیماران مشکوک به بیماری التهابی روده بررسی شود.

در بسیاری از موارد، علائم دهانی بیماری‌ها می‌تواند مقدم یا هم‌زمان با علائم سیستمیک اتفاق بیفتد که در صورت عدم توجه به تاریخچه کامل ممکن است از دید پزشک دور نگه داشته شود و موجب تأخیر در تشخیص بیماری مربوطه گردد. لذا توصیه می‌شود در مواردی که بیمار با مشکل دهانی مراجعه می‌کند بررسی‌های لازم جهت رد احتمال رخداد بیماری سیستمیک گرفته شود و در صورت لزوم به متخصص مربوطه ارجاع گردد.

در هر دو گزارش مورد با مشاهده چنین نمایی از زخم‌ها، تشخیص‌های افتراقی شامل بیماری‌هایی با زخم‌های منتشر و الگوی خاص وجتیتو شامل پیوستوماتیت و جتانت، پمفیگوس و جتانس، عفونت‌های قارچی، بیماری‌های گرانولوماتوز مانند وگنر گذاشته شد. با توجه به سن پایین بیماران نسبت به رخداد بیماری پمفیگوس و نادر بودن بیماری‌های گرانولوماتوز، همچنین عدم سابقه‌ای خاص برای ضایعه قارچی عمقی، سابقه مبهم از علائم گوارشی و آنمی مشهود در آزمایش‌های به‌عمل آمده، پیوستوماتیت و جتانت وابسته به بیماری‌های التهابی روده، در اولویت تشخیص‌های افتراقی قرار گرفت (۱) (۱۶-۱۴). در مطالعات مختلف، اولین مکان درگیری بدون حضور ضایعات پوستی و روده‌ای در دهان ذکر شده است (۱۹-۱۷).

References:

1. Laranjeira N, Fonseca J, Meira T, Freitas J, Valido S, Leitao J. Oral mucosa lesions and oral symptoms in inflammatory bowel disease patients. *Arq Gastroenterol* 2015;52(2):105-10. PubMed
2. Kumar KM, Nachiammai N, Madhushankari GS. Association of oral manifestations in ulcerative colitis: A pilot study. *J Oral Maxillofac Pathol* 2018;22(2):199-203. PubMed
3. Sartor RB. Mechanisms of disease: pathogenesis of Crohn's disease and ulcerative colitis. *Nat Clin Pract Gastroenterol Hepatol* 2006;3(7):390-407. PubMed
4. Lourenco SV, Hussein TP, Bologna SB, Sipahi AM, Nico MM. Oral manifestations of inflammatory bowel disease: a review based on the observation of six cases. *J Eur Acad Dermatol Venereol* 2010;24(2):204-7. PubMed
5. Glick M. *Burket's Oral Medicine*. 12th ed. Shelton: People's Medical Publishing House USA; 2015.
6. Elahi M, Telkabadi M, Samadi V, Vakili H. Association of oral manifestations with ulcerative colitis. *Gastroenterol Hepatol Bed Bench* 2012;5(3):155-60. PubMed

7. Vasovic M, Gajovic N, Brajkovic D, Jovanovic M, Zdravkovaic N, Kanjevac T. The relationship between the immune system and oral manifestations of inflammatory bowel disease: a review. *Cent Eur J Immunol* 2016;41(3):302-10. PubMed
8. Baumgart DC, Sandborn WJ. Crohn's disease. *Lancet* 2012;380(9853):1590-605. PubMed
9. Lankarani KB, Sivandzadeh GR, Hassanpour S. Oral manifestation in inflammatory bowel disease: a review. *World J Gastroenterol* 2013;19(46):8571-9. PubMed
10. Hussey S, Fleming P, Rowland M, Harty S, Chan L, Broderick A, et al. Disease outcome for children who present with oral manifestations of Crohn's disease. *Eur Arch Paediatr Dent* 2011;12(3):167-9. Link
11. Rowland M, Fleming P, Bourke B. Looking in the mouth for Crohn's disease. *Inflamm Bowel Dis* 2010;16(2):332-7. PubMed
12. Solem CA, Loftus EV, Jr, Tremaine WJ, Harmsen WS, Zinsmeister AR, Sandborn WJ. Correlation of C-reactive protein with clinical, endoscopic, histologic, and radiographic activity in inflammatory bowel disease. *Inflamm Bowel Dis* 2005;11(8):707-12. PubMed
13. Raza A, Yousaf W, Giannella R, Shata MT. Th17 cells: interactions with predisposing factors in the immunopathogenesis of inflammatory bowel disease. *Expert Rev Clin Immunol* 2012;8(2):161-8. PubMed
14. Dimmock M, Mendes LC, Albluwi S, Paul C, Thomas C, Laurencin S, et al. An oral manifestation of IBD: Pyostomatitis vegetans, about two cases. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg* 2019;120(4):375-7. PubMed
15. Muhvic-Urek M, Tomac-Stojmenovic M, Mijandrusic-Sincic B. Oral pathology in inflammatory bowel disease. *World J Gastroenterol* 2016;22(25):5655-67. PubMed
16. Tan CXW, de Boer NKH, Brand HS. [Oral manifestations of Crohn's disease]. *Nederlands Tijdschrift voor Tandheelkunde* 2018;125(1):15-20. Link
17. Liu X, Gao Y, Hua H. Pyostomatitis vegetans: two cases report and review. *Zhonghua Kou Qiang Yi Xue Za Zhi* 2014;49(3):191-2. PubMed
18. Thornhill MH, Zakrzewska JM, Gilkes JJ. Pyostomatitis vegetans: report of three cases and review of the literature. *J Oral Pathol Med* 1992;21(3):128-33. PubMed
19. Ayangco L, Rogers RS, 3rd, Sheridan PJ. Pyostomatitis vegetans as an early sign of reactivation of Crohn's disease: A case report. *J Periodontol* 2002;73(12):1512-6. PubMed
20. Safarpour AR, Hosseini SV, Mehrabani D. Epidemiology of inflammatory bowel diseases in Iran and Asia; a mini review. *Iran J Med Sci* 2013;38(2 Suppl):140-9. PubMed
21. Shivappa N, Hebert JR, Rashvand S, Rashidkhani B, Hekmatdoost A. Inflammatory Potential of diet and risk of ulcerative colitis in a case-control study from Iran. *J Nutr Cancer* 2016;68(3):404-9. Link