

Eozinofilik Anjiyolenfoid Hiperplazi: Lokal İskemi İlişkisi

Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia: Association with Local Ischemia: Case Report

Fatma Pelin CENGİZ,^a
Nazan EMİROĞLU^b

^aDermatoloji Kliniği,
Kars Devlet Hastanesi, Kars
^bDermatoloji Kliniği,
Tavşanlı Devlet Hastanesi, Kütahya

Geliş Tarihi/Received: 08.01.2014
Kabul Tarihi/Accepted: 27.03.2014

Yazışma Adresi/Correspondence:
Fatma Pelin CENGİZ
Kars Devlet Hastanesi,
Dermatoloji Kliniği, Kars,
TÜRKİYE/TURKEY
fpelinozgen@hotmail.com

ÖZET Eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi, etiyolojisi bilinmeyen, nadir görülen ve iyi huylu bir vasküler hastalıktır. Eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi, ağırlıklı olarak kulak etrafında olmak üzere baş boyun bölgesine yerleşen, pembe, kırmızımsı kahverengi papül veya nodüllerle karakterizedir. Daha nadir görülen yerleşim yerleri ise gövde, ekstremiteler, genital bölge, dudaklar ve oral mukozadır. İyi huylu doğasına rağmen, eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi minimal travmayla kanamaya meyillidir ve lezyonlara sıklıkla kaşıntı, ağrı, pulsasyon hissi eşlik eder. Bazı lezyonlar püstüler veya ülserlenebilir. Bu lezyonlar, genellikle persistandır ve tedavi sonrası rekürrensi sıktır. Bu yazıda, bacağındaki ülserle lezyonlarına lokal iskemi ile ilişkili eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi tanısı konmuş bir olgu sunuyoruz.

Anahtar Kelimeler: Eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi; iskemik kontraktür

ABSTRACT Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia is a rare and benign vascular disease of unknown etiology. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia is characterized by pink to reddish-brown papules or nodules which are mainly localized on the head and neck with particular predilection around the ear. Other less common locations are the trunk, extremities, genitalia, lips and oral mucosa. Despite its benign nature, angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia tends to bleed with minimal trauma and is frequently accompanied by pruritus, pain, or a pulsatile sensation. Some lesions can be pustulate or ulcerated. These lesions are often persistent and recurrences appear to be frequent after treatment. Here, we present our data on a patient with ulcerated lesions on the leg, subsequently diagnosed as a rare case of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia associated with local ischaemia.

Key Words: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia; ischemic contracture

Türkiye Klinikleri J Dermatol 2013;23(3):110-3

Wells ve Whimster, eozinofilik anjiyolenfoid hiperplazi (ALHE)'yi 1969 yılında tanımlamıştır.¹ ALHE, özellikle genç ve orta yaşlı kadınların baş boyun bölgesini etkileyen nadir görülen, iyi huylu bir vasküler proliferasyondur.^{2,3} Soliter veya multipl, yüzeysel veya subkütan, pembe kırmızı papül ve nodüllerle karakterizedir.⁴ ALHE'nin etiyolojisi kesin olarak bilinmemekle birlikte, allerjik reaksiyonlar, travma veya otoimmün hastalıklar muhtemel sebepleridir.⁵

OLGU SUNUMU

Elli beş yaşındaki erkek hasta polikliniğimize, sağ bacağına iki aydır devam eden yaralar şikâyetiyle başvurdu. Sağ bacağına, dinlenme sırasında olan ağrısı vardı. Ayrıca sağ üst bacağının tamamına yakınına kaplayan yanık sonucu oluşan kontraksiyon skarı vardı. Öz geçmişinden altı ay önce sağ inferior epigastrik veninden akut tromboz geçirdiği öğrenildi.

Dermatolojik muayenesinde, sağ üst bacağının ve dizinin medial yüzünde iki adet ülser lezyon olduğu görüldü. Ülserler yuvarlak şekilli ve düzensiz sınırlıydı (Resim 1). Ülser tabanında yumuşak granülasyon dokusu ve seröanjinoz akıntı mevcuttu (Resim 2). Ülserlerin en büyüğü 3 cm çapındaydı. Eşlik eden lenfadenopati veya sistemik hastalık yoktu. Sağ bacakta his ve periferel nabızlar normaldi. Laboratuvar tetkiklerinde, total IgE seviyesinin yükselmiş olduğu görüldü (990 ng/mL,



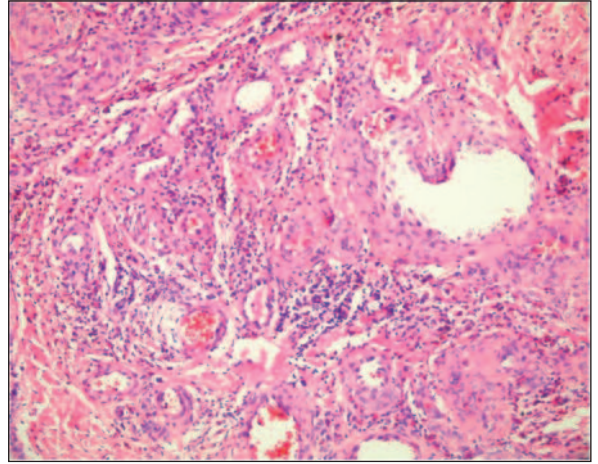
RESİM 1: Operasyon öncesi.

(Renkli hali için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)



RESİM 2: Seröz akıntı.

(Renkli hali için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)



RESİM 3: Atipik endotelial hücrelerin proliferasyonu ve etrafındaki lenfositik ve eozinofilik infiltrat (HE, X200)

(Renkli hali için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)

NR<100 ng/mL), periferel eozinofili saptanmadı. Diğer serum değerleri normaldi. Ülserden ve akıntından kültür alındı, bu kültürlerde üreme olmadı. Hastanın ülserinden 4 mm'lik punch biyopsi alındı, histopatolojik muayenesinde atipik endotelial hücrelerle olan vasküler proliferasyon ve bunların etrafında lenfositik ve eozinofilik infiltrat görüldü (Resim 3). Hastaya klinik ve histopatolojik bulgularla ALHE tanısı kondu.

Abdomen tomografisi internal bir tutulum olmadığını gösterdi. Arteriyel ve venöz Doppler sonucunda sağ femoral ve popliteal vende düzensizlik ve femoral arterde azalmış akım görüldü.



RESİM 4: Operasyon sonrası

(Renkli hali için Bkz. <http://www.turkiyeklinikleri.com/journal/dermatoloji-dergisi/1300-0330/>)

Kutanöz lezyonların sebebinin kontraktür skarına bağlı lokal iskemi olabileceğini düşündük. Hastamız plastik cerrahi bölümüne kontraktür skarının düzeltilmesi amacıyla danışıldı ve operasyonu plastik cerrahi bölümü tarafından yapıldı. Bu operasyon hastanın dinlenme sırasında olan ağrısını azalttı ve etkilenen bacağın perfüzyonu düzeldi. Hastanın postoperatif döneminde ülser lezyonları kendiliğinden düzeldi (Resim 4). İki yıllık takibi sonucunda hastanın lezyonlarında nüks gözlenmedi.

TARTIŞMA

ALHE, özellikle genç ve orta yaşlı erişkinlerde görülen, retroaurikuler bölgede tek veya multipl pembe kahverengi nodüllerle karakterizedir.^{6,7} Daha nadir görülen tutulum yerleri ise, gövde, ekstremiteler, dudaklar ve oral mukozadır. İyi huylu olmasına rağmen, minimal travmayla kanayabilir ve lezyonlarda kaşıntı, ağrı, pulsasyon olabilir. Bazı lezyonlar püstüler veya ülseredir.^{6,8} Lenfadenopati (%5-20) veya periferik eozinofili (%20) görülebilir.^{4,8} Bizim hastamızda, lenfadenopati ve periferik eozinofili yoktu.

Histopatolojik olarak, kan damarlarının proliferasyonu ve lümeneye doğru uzanan epitelioid veya histiyositlerle karakterizedir. Bu görüntü genellikle kaldırım taşı görüntüsüne benzer. Vasküler proli-

ferasyonların etrafında ağırlıklı olarak eozinofillerden oluşan infiltrat bulunur.⁹

Ayırıcı tanısında Kimura hastalığı, fasyal granülom, kutanöz lenfoma ve sarkoidoz bulunur.⁵ Bizim hastamızın bacağındaki ülser lezyonların ayırıcı tanısında ise, venöz ülser, sistemik hastalıklara bağlı (diyabete ve koagülasyon bozukluğuna) ülser, bakteriyel enfeksiyona bağlı (stafilokok ve streptokok) ülser, vaskülitte bağlı ülser ve kutanöz tümörler düşünülmüştür. Hastalığın tanısını koymak amacıyla alınan yara kültürleri enfeksiyonu dışlarken, laboratuvar tetkikleri sonucunda diyabet ve koagülasyon bozukluğu gibi sistemik hastalıkların olmadığı anlaşılmıştır. Deri biyopsisi ise, kutanöz tümörü dışlarken; atipik endotelial hücrelerle olan vasküler proliferasyon ve bunların etrafındaki lenfositik ve eozinofilik infiltrat, hastaya ALHE tanısını koydurmuştur.

Olsen ve ark.nın yaptığı çalışmada, 116 ALHE hastasının sadece dördünün lezyonlarının bacakta olduğu görülmüştür.⁶ Bito ve ark. da, bacakta gelişen plak lezyona ALHE tanısı koyarak Th2 sitokin inhibitörü suplastat tosilatla başarılı bir şekilde tedavi etmiştir.¹⁰ Bizim olgumuzdaki gibi bacakta lezyon lezyon şeklinde ALHE'ye literatürde rastlanmamıştır.

ALHE'nin etiyolojisi bilinmemektedir, ancak travma, enfeksiyonlar, renin ve hiperestrogenizm cevap olarak gelişen vasküler dokunun reaktif bir hiperplazisi olduğu düşünülmektedir.^{6,8} Googe ve ark., ALHE'de görülen vasküler proliferasyonun, önce oluştuğunu, gelişen inflamatuvar cevabın ise sekonder bir fenomen olduğunu düşünmüştür.¹¹ Buna rağmen, ALHE'nin gerçek bir vasküler neoplazm mı, yoksa damar hasarına bağlı sekonder reaktif bir süreç mi olduğu bilinmemektedir. Biz, hastamızda kontraksiyon skarına bağlı lokal iskeminin ALHE'ye yol açabileceğini düşündük. Fernandez ve ark.nın hipotezinde lokal iskeminin arteriyovenöz malformasyonla ilişkili olduğu, renin yükselmesi ve anjiyotensin 2'nin endotelial hücrelerin proliferasyonuna katkıda bulunduğu yer almaktadır.¹² Tseng ve ark.nın ALHE olgusunda, lezyonlar ön kolda elektrik yanığı sonrası gelişmiştir.¹³ Hastada geniş eliptik eksizyon yapıldıktan sonra beş yıl boyunca nüks gözlenmemiştir ve ya-

nığın ALHE gelişimini tetiklediği düşünülmüştür. Bu olguda olduğu gibi ALHE'nin etiolojisinde hâlen tam olarak aydınlatılamamış sebepler olduğu düşünülmektedir. Bizim olgumuzda olduğu gibi, lokal iskemi, ALHE'de inflamatuvar reaksiyonu tetikleyen bir faktör olabilir.

ALHE'de birçok tedavi yöntemi denenmiştir. Ama tedaviler hâlen yetersiz kalmaktadır. En çok önerilen cerrahi eksizyondur, ama sonrasında %50 oranında rekürrens bildirilmiştir. Diğer yöntemlerden, kriyoterapi, radyoterapi, pulse dye lazer, retinoidler, topikal veya intralezyoner kortikosteroidler, interferon- α , anti-interlökin-5 antikoruna,

imiquimod ve topikal takrolimusun değişikken etkinlikleri vardır.^{3,5,7}

Olgumuzda, ALHE'nin remisyonu için, rejyonel kan damarlarına baskı yapan kontraktür skarın eksizyonu gerekli olduğunu düşündük. Cerrahi prosedürden iki ay sonra olgumuzun lezyonlarında tamamen düzelme olduğu görüldü. Bizim olgumuzdaki iyileşme, ALHE'nin reaktif bir süreç olduğunu ve gerçek bir vasküler neoplazm olmadığını düşündürmektedir. Ancak lokal iskemi ve ALHE arasındaki ilişki hâlen kesin olarak kanıtlanamamıştır. Gözlemimizi doğrulayabilecek çalışmalarla ihtiyaç duyulmaktadır.

KAYNAKLAR

1. Wells GC, Whimster IW. Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Br J Dermatol* 1969;81(1):1-14.
2. Sharp JF, Rodgers MJ, MacGregor FB, Meehan CJ, McLaren K. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *J Laryngol Otol* 1990;104(12):977-9.
3. Wang S, Li W. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia successfully treated with tacrolimus ointment. *J Eur Acad Dermatol Venereol* 2010;24(2):237.
4. Kim SM, Yoon J, Yoon TJ. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia on the palm. *Ann Dermatol* 2010;22(3):358-61.
5. Lembo S, Balato A, Cirillo T, Balato N. A Long-term follow-up of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia treated by corticosteroids: When a traditional therapy is still up-to-date. *Case Rep Dermatol* 2011;3(1):64-7.
6. Olsen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. A clinicopathologic study of 116 patients. *J Am Acad Dermatol* 1985;12(5 Pt 1):781-96.
7. Redondo P, Del Olmo J, Idoate M. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia successfully treated with imiquimod. *Br J Dermatol* 2004;151(5):1110-1.
8. El Sayed F, Dhaybi R, Ammouy A, Chababi M. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: efficacy of isotretinoin? *Head Face Med* 2006;2:32. doi:10.1186/1746-160X-2-32.
9. Jeon EK, Cho AY, Kim MY, Lee Y, Seo YJ, Park JK, et al. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia that was possibly induced by vaccination in a child. *Ann Dermatol* 2009;21(1):71-4.
10. Bito T, Kabashima R, Sugita K, Tokura Y. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia on the leg successfully treated with T-helper cell 2 cytokine inhibitor suplastat tosilate. *J Dermatol* 2011;38(3):300-2.
11. Googe PB, Harris NL, Mihm MC Jr. Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: two distinct histopathological entities. *J Cutan Pathol* 1987;14(5):263-71.
12. Fernandez LA, Olsen TG, Barwick KW, Sanders M, Kaliszewski C, Inagami T. Renin in angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Its possible effect on vascular proliferation. *Arch Pathol Lab Med* 1986;110(12): 1131-5.
13. Tseng HW, Chien SH, Wu CS, Tseng HH, Tseng CE. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia developing on an antecedent welding burn: a case report. *Kaohsiung J Med Sci* 2010;26(5):266-70.



Yayımlanan her makalenin ve yayımlandığı derginin uluslararası bilim camiasındaki etkinliği, **atıf sayıları** ile doğru orantılıdır. Daha fazla etkinlik için;

daha fazla **atıf yapmak...**

işte bütün
mesele bu...

Türkiye'nin dünya bilimindeki etkinliğinin artırılmasını kendisine misyon edinen **Türkiye Atıf Dizini** hizmetinizde...

www.atifdizini.com

