

گزارش یک مورد آنژیولنفوئید هیپر پلازی با ائوزینوفیلی در ناحیه ساعد، دست و بستر ناخن

محمد رضا سبحان^{۱*}، علی اصغر رضائزاد^۲، حمید رضا قاسمی بصیر^۳، محمود فرشچیان^۴

^۱ استادیار، گروه پوست و مو، مرکز تحقیقات پسونریازیس، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران

^۲ دستیار، گروه پوست و مو، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران

^۳ استادیار، گروه آسیب شناسی، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران

^۴ استاد، گروه پوست و مو، مرکز تحقیقات پسونریازیس، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران

*نویسنده مسئول: محمد رضا سبحان، استادیار، گروه پوست و مو، مرکز تحقیقات پسونریازیس، دانشگاه علوم پزشکی همدان، همدان، ایران. ایمیل: mreza_sobhan@yahoo.com

DOI: 10.21859/hums-240212

چکیده

مقدمه: آنژیولنفوئید هیپر پلازی با ائوزینوفیلی و یا همانژیوم اپی تلیوئید یک وضعیت ناشایع ناشی از تکثیر خوش خیم عروق درمال و یا ساب درمال است. ضایعات آن به صورت پاپول پلاک و یا ندولهای منفرد یا متعدد قرمز رنگ می باشد که بیشتر ناحیه سروگردن را درگیر میکند. این بیماری اغلب در زنان و در سنین جوانی تا میانسالی دیده می شود. علت این بیماری شناخته شده نیست و به درمان های توصیه شده از جمله جراحی مقاوم است. تمایل به عود در ضایعات درمان شده نیز بالا می باشد.

معرفی بیمار: این گزارش به معرفی یک زن ۳۹ ساله می پردازد که با پاپول و ندول های متعدد خونریزی دهنده در ناحیه ساعد و دست و بستر ناخن های سمت چپ مراجعه نموده است. **نتیجه گیری:** موقعیت و همچنین تعداد و گستردگی ضایعات در این بیمار بسیار قابل توجه بوده و ضایعات پوستی در بررسی هیستوپاتولوژی مطابق با تشخیص آنژیولنفوئید هیپر پلازی با ائوزینوفیلی بود.

تاریخ دریافت مقاله: ۱۳۹۵/۱۱/۰۲

تاریخ پذیرش مقاله: ۱۳۹۶/۰۴/۰۷

واژگان کلیدی:

آنژیولنفوئید هیپر پلازی

ائوزینوفیلی

همانژیوم اپی تلیوئید

تکثیر عروقی

تمامی حقوق نشر برای دانشگاه علوم پزشکی همدان محفوظ است.

مقدمه

باشد. بیشتر ضایعات درمال هستند اما گاهی در اپیدرم هم دیده می شوند. علت بیماری نا شناخته بوده و وجود آسیب در دیواره عروق بر نقش تروما و شانت های شریانی - وریدی در پاتوژنز آن اشاره دارد. در بافت شناسی ضایعات این بیماری پرو لیفراسیون عروق کوچک و سلولهای اندوتلیال اپی تلیوئیدی در زمینه یک ارتشاح متراکم ائوزینوفیلی و لنفوسیتی دیده می شود [۲]. بیماری کیمورا (Kimura Disease) که یک نوع پرو لیفراسیون لنفوئید خوش خیم می باشد، تشخیص افتراقی اصلی این بیماری بوده که با علائم این بیماری همپوشانی قابل ملاحظه ای دارد. در این گزارش یک مورد نادر از این بیماری که به صورت ضایعات گسترده در ساعد و بستر ناخن ها که مکانهای نامعمولی جهت این وضعیت می باشند، معرفی می گردد.

آنژیولنفوئید هیپر پلازی با ائوزینوفیلی (ALHE: Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia) یا همانژیوم اپی تلیوئید، یک ضایعه خوش خیم عروق کوچک می باشد که در سال ۱۹۶۹ توسط ولز و ویلمستر برای اولین بار توصیف شده است [۱]. این بیماری بیشتر زنان سنین بین ۲۰ تا ۴۰ ساله را درگیر می کند اما در هر دو جنس و همه سنین می تواند دیده شود. ضایعات این بیماری بصورت پاپول پلاک و یا ندول های اریتماتو و یا هم رنگ پوست می باشد که تمایل به درگیری ناحیه سر و گردن بویژه اطراف گوش را دارد اما درگیری دهان، تنه، انتهای اندام ها و ناحیه تناسلی نیز گزارش شده است. ضایعات می تواند بصورت منفرد و یا گروهی ظاهر شود و می تواند بدون علامت، دردناک، خارش دار و یا ضراباندار

معرفی بیمار

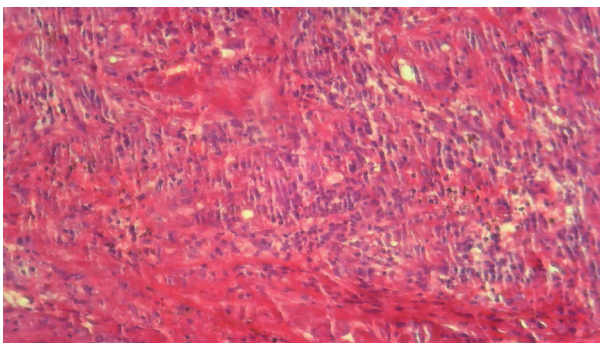
شد. همچنین در آزمایش‌های سریال انجام شده به تدریج هموگلوبین بیمار افزایش یافته و پس از یک هفته بیمار از بخش خون مرخص گردید. دراززبایی هیستوپاتولوژیک، پوست هیپر پلاستیک به همراه پرولیفراسیون نئوپلاستیک عروق کوچک و کاپیلاری با طرح لوبولار مفروش از سلولهای اندوتلیال با هسته‌های بیضی شکل و بزرگ با نمای اپیتلیوئید در ناحیه درم مشاهده شد. تغییرات موسینوز و ارتشاح التهابی متشکل از لنفوسیت و ائوزینوفیل نیز مشاهده گردید (تصاویر ۳ و ۴). با توجه به یافته‌های ذکر شده، جهت بیمار "همانژیوم اپی تلیوئید" و یا "ائوزینوفیلیدهیپرپلازی بائوزینوفیلی" مطرح گردید.



تصویر ۱: پاپول ندول های اریتماتوی متعدد در ناحیه ساعد که به علت خارش و برخی ضایعات دچار خونریزی سطحی شده‌اند.



تصویر ۲: نمای دیگری از ضایعات در ناحیه پشت دست و بستر ناخن‌ها



تصویر ۳: ارتشاح التهابی پلی مورف در زمینه پرعروق متشکل از پرولیفراسیون عروق کاپیلری با نمای لوبولار در درم (رنگ امیزی ه ماتوکسیلین-ائوزین با بزرگنمایی ۱۰)

بیمار مورد نظر یک زن ۳۹ ساله، خانه دار و ساکن همدان می‌باشد این بیمار با شکایت از ضایعات برجسته اریتماتو و خارش دار و خونریزی دهنده در ناحیه ساعد و پشت دست چپ و زیر ناخن که از دو سال قبل از مراجعه ایجاد شده بود، به مرکز آموزشی و درمانی فرشچیان همدان مراجعه نمود. در معاینه ضایعات پوستی به صورت پاپول و ندول های اریتماتو متعدد که به علت خارش شدید، برخی از ضایعات دچار خونریزی و زخم شده (تصاویر ۱ و ۲) و ناحیه پشت ساعد تا پشت دست، کف دست و زیر ناخن هارا درگیر کرده بود، مشاهده شد. هر ضایعه ابعادی بین ۰/۵ تا ۱ سانتی متر را دارا بود و به علت خارش مزمن، پوست اطراف ضایعات لیکنیفیه شده و برخی ضایعات نیز زخمی شده بودند. علائم حیاتی بیمار نرمال بود. بیمار از ضعف و بیحالی، خارش و خونریزی از ضایعات، شکایت داشت. بیمار هیچگونه سابقه‌ای از بیماری سیستمیک، عفونت موضعی و تروما به ناحیه را ذکر نمی‌کرد. در سابقه مصرف دارویی بیمار، هیچ دارویی وجود نداشت. بیمار متأهل و دارای پنج فرزند سالم بود و سابقه‌ای از بیماری مشابه را در خانواده ذکر نمی‌کرد. آزمایش‌های در خواستی شامل CBC,DIFF,LFT.BUN Cr, U/A از بیمار گرفته شد. در آزمایش‌های درخواستی، آنمی شدید با یافته‌های ذیل مشاهده شد:

WBC: ۶۴۰۰

RBC: ۲/۷۴ (Low)

Hemoglobin: ۳/۹ (Low)

Hematocrit: ۱۸/۲ (Low)

Platelets: ۴۳۲۰۰۰

M.C.V: ۶۶/۴ (Low)

M.C.H: ۱۴/۲ (Low)

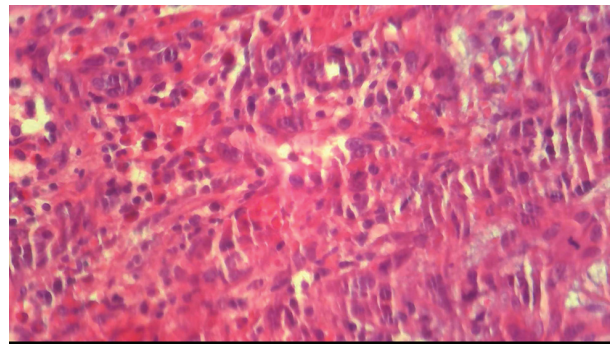
M.C.H.C: ۲۱/۴ (Low)

ESR: ۲۶ (High)

با توجه به PT و INR و پلاکت نرمال بیمار از یکی از ضایعات، بیوپسی انسزیو نال به عمل آمد. با توجه به آنمی شدید، ایشان به بخش هماتولوژی ارجاع شد که در بدو ورود تحت درمان با ۲ واحد PACK CELL قرار گرفت و ارزیابی های تکمیلی، از جمله بیوپسی مغز استخوان و همچنین آندوسکوپی جهت بیمار انجام شد که یک زخم clean base در ناحیه دئودنوم مشاهده و جهت بیمار deodenal ulcer مطرح گردید. سونو از شکم و لگن انجام شد که هیچگونه مشکلی گزارش نگردید. در نهایت بجز زخم ناحیه دئودنوم تمامی ارزیابی‌های انجام شده از جمله بیوپسی مغز استخوان نرمال گزارش

آن تکثیر لبولار عروق کاپیلری در اطراف عروق بزرگتر دیده می‌شود. سلول‌های اندوتلیال بزرگ، نمای اپیتلیوئید داشته و به داخل لومن عروق برجسته شده است و یک نمای SCALLOPED ایجاد می‌کند [۴]. به علت وجود سلولهای اندو تلیال اپیتلیوئیدی، نام دیگر این بیماری "همانژیوم اپی تلیوئید" می‌باشد. در اطراف عروق ارتشاح متراکم لنفوسیت و اتوزینوفیل و در برخی موارد ارتشاح ماست سل و پلازما سل هم گاهی دیده می‌شود. در ضایعات زیر جلدی تجمعات لنفو ئیدی نیز معمولاً مشاهده می‌شود، آسیب و حتی پاره شدن دیواره عروق و انسداد لومینال هم در برخی موارد گزارش گردیده است. ساختارهای آدنکسال درگیر نبوده و در ضایعات قدیمی فیبروز بیشتر و جز التهابی کمتری وجود دارد. سلول‌های اندو تلیال برای CD^{31} , CD^{34} , VWF مثبت و برای KERATIN منفی است. سلول‌های لنفوسیت اصلی T helper هایی هستند که CD^{3} , CD^{4} , CD^{43} و CD^{45R} را بیان می‌کنند [۵].

تشخیص افتراقی اصلی این بیماری Kimura Disease می باشد که این بیماری نیز یک پرولیفراسیون لنفوئید خوش خیم بوده و بیشتر زنان نژاد آسیایی را درگیر می‌کند اما در سایر نژادها هم دیده شده است [۶]. بیماری کیمورا تریاد تشخیصی شامل موارد ذیل دارد: (۱) توده‌های عروقی زیر جلدی در ناحیه سر و گردن (۲) اتوزینو فیلی خون محیطی (۳) افزایش سطح سرمی IgE در گذشته بیماری کیمورا را یک واریان از ALHE می‌دانستند اما در حال حاضر این دو بیماری را به عنوان دو بیماری مجزا تعریف می‌کنند. در عین حال چندین گزارش، همپوشانی زیادی را بین ALHE و Kimura Disease تو صیف کرده‌اند [۵]. درمان انتخابی ضایعات منفرد اکسیژن جراحی می‌باشد. لیزرهای PDL, COPPER VAPOR, Co₂ و لیزر آرگون موفقیت‌های متعددی داشته‌اند. اسکروتراپی، رادیو فرکوتنسی و تزریق داخل ضایعه بلئو مایسین، وین بلاستین و فلئورو اوراسیل نیز در درمان ضایعات استفاده شده است [۷]. در یک گزارش تزریق داخل ضایعه کورتیکواستروئید، به صورت تکرار شونده اثراتی معادل با اکسیژن جراحی داشته است. انجام کرایو تراپی و استفاده موضعی از ایمیکیمود نیز در برخی مطالعات با نتایج خوبی همراه بوده است. در یک مطالعه با استفاده از کرایو تراپی ضایعات محو شده و پس از یک سال از پیگیری هیچگونه عودی دیده نشد [۸]. در یک مطالعه نیز از رادیوفرکوتنسی (RF) داخل ضایعه استفاده شد که طی آن ضایعات کوچک پس از دو جلسه محو و پس از ۳ سال پیگیری هیچ عودی مشاهده نشد، ضایعات بزرگتر نیز با ۴ جلسه ۷۰-



تصویر ۴: ارتشاح پلی مورف، متشکل از لنفوسیت‌های بالغ و تعداد زیادی اتوزینوفیل در لابلای عروق کاپیلری مفروش از سلولهای اندوتلیال با نمای اپیتلیوئید (رنگ آمیزی هماتوکسیلین-اتوزین با بزرگنمایی ۴۰)

باتوجه به ضایعات متعدد این بیمار، انجام جراحی و خارج کردن ضایعات، روش مناسبی نبود. لذا به مدت ۶ هفته ایشان تحت درمان با تزریق داخل ضایعه تریامسینولون به میزان ۵mg/ml قرار گرفت. همزمان مشاوره قلب جهت بیمار انجام شد و ۴۰ میلی گرم پروپرانولول روزانه جهت بیمار شروع شد. همچنین با توجه به شکایت اصلی بیمار که خارش شدید و متعاقب آن خونریزی ضایعات بود، داکسپین ۱۰ میلی گرم هر شب جهت بیمار تجویز شد. در مراجعات بعدی و پس از ۶ هفته هیچگونه تغییری در اندازه و تعداد ضایعات مشاهده نشد و تنها خارش بیمار و متعاقب آن خونریزی ضایعات کمتر شده بود. با توجه به ادامه خونریزی از ضایعات و گستردگی درگیری در نهایت بیمار جهت دریافت رادیوتراپی به مرکز دیگری معرفی گردید.

بحث

همانژیوم اپیتلیوئید نوعی مالفورماسیون خوش خیم و التهابی عروق کوچک است که ضایعات آن رشدی آهسته دارند. علت بیماری واضح نیست اما برخی منابع این بیماری را ناشی از تروما و یا یک شانت شریانی -وریدی و یا مالفورماسیون شریانی -وریدی ذکر کرده‌اند [۳]. بنابراین، به نظر می‌رسد این ضایعات بیشتر واکنشی باشند تا یک فرایند نئو پلاستیک. این بیماری در هر دو جنس و تمام نژادها و سنین مختلف گزارش شده است اما معمولاً زنان بین سنین ۲۰ تا ۴۰ سالگی مبتلا می‌شوند. ضایعات به صورت پاپول پلاک و ندولهای منفرد یا گروهی اریتماتو و یا هم‌رنگ پوست می‌باشند. این ضایعات معمولاً بدون علامت بوده اما می‌توانند همراه با خارش، سوزش و یا درد و ضربان دار باشند. ضایعه به طور معمول در درم و بافت زیر جلدی، با یک حاشیه مشخص قرار گرفته است و در بافت شناسی

۸۰٪ کاهش در ضایعات را داشتند که پس از دو سال هیچگونه افزایش اندازه را نشان نداده بودند. بنابراین، RF به عنوان یک روش کارآمد و ارزان قیمت در درمان ضایعات ALHE مطرح می‌باشد. از دیگر روشهای درمانی ذکر شده بویژه در ناحیه

بستر ناخن و استخوان، رادیوتراپی می‌باشد [۹]. باتوجه به اینکه درمان ضایعات ALHE مشکل بوده و همچنین باتوجه به ماهیت عودکننده و متعدد بودن ضایعات، توصیه شده از روشهای کمترتهاجمی در درمان این بیماری استفاده گردد.

REFERENCES

1. Esteves P, Barbalho M, Lima T, Quintella L, Niemeyer-Corbellini JP, Ramos ESM. Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia: A Case Report. *Case Rep Dermatol*. 2015;7(2):113-6. DOI: [10.1159/000381843](https://doi.org/10.1159/000381843) PMID: [26120306](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/26120306/)
2. Chitrapu P, Patel M, Readinger A, Menter A. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Proc (Bayl Univ Med Cent)*. 2014;27(4):336-7. PMID: [25484503](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/25484503/)
3. Panicker VV, Dharamaratnam AD, Kuruville J. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Indian Dermatol Online J*. 2012;3(1):80. DOI: [10.4103/2229-5178.93481](https://doi.org/10.4103/2229-5178.93481) PMID: [23130278](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/23130278/)
4. Rezanejad A, Sobhan M, Gasemibasir H. [Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: report of a pregnant case]. *J Dermatol Cosmet*. 2016;7(2):115-9.
5. Jung KE, Kim KM, Lee JY, Kim HO, Park YM. Erythematous protruding skin lesion in the retroauricular area. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Acta Derm Venereol*. 2014;94(3):365-7. DOI: [10.2340/00015555-1628](https://doi.org/10.2340/00015555-1628) PMID: [24037019](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24037019/)
6. Buder K, Ruppert S, Trautmann A, Brocker EB, Goebeler M, Kerstan A. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia and Kimura's disease - a clinical and histopathological comparison. *J Dtsch Dermatol Ges*. 2014;12(3):224-8. DOI: [10.1111/ddg.12257](https://doi.org/10.1111/ddg.12257) PMID: [24580875](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/24580875/)
7. Singh S, Dayal M, Walia R, Arava S, Sharma R, Gupta S. Intralesional radiofrequency ablation for nodular angiolymphoid hyperplasia on forehead: a minimally invasive approach. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2014;80(5):419-21. DOI: [10.4103/0378-6323.140300](https://doi.org/10.4103/0378-6323.140300) PMID: [25201842](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/25201842/)
8. Reddy PK, Prasad AL, Sumathy TK, Shivaswamy KN, Ranganathan C. An Overlap of Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia and Kimura's Disease: Successful Treatment of Skin Lesions with Cryotherapy. *Indian J Dermatol*. 2015;60(2):216. DOI: [10.4103/0019-5154.152574](https://doi.org/10.4103/0019-5154.152574) PMID: [25814755](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/25814755/)
9. Conill C, Toscas I, Mascaro JM, Jr, Vilalta A, Mascaro JM. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the nail bed and bone: successful treatment with radiation therapy. *J Eur Acad Dermatol Venereol*. 2004;18(S):584-5. DOI: [10.1111/j.1468-3083.2004.00976.x](https://doi.org/10.1111/j.1468-3083.2004.00976.x) PMID: [15324400](https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/15324400/)

A Case Report of Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia in Forearm, Hand and Nail Bed

Mohammadreza Sobhan ^{1,*}, Aliasghar Rezanejad ², Hamidreza Ghasemibasir ³, Mahmoud Farshchian ⁴

¹ Assistant Professor, Psoriasis Research Center, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran

² Resident, Department of Dermatology, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran

³ Assistant Professor, Department of Pathology, School of Medicine, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran

⁴ Professor, Psoriasis Research Center, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran

* Corresponding author: Mohammadreza Sobhan, Assistant Professor, Psoriasis Research Center, Hamadan University of Medical Sciences, Hamadan, Iran. E-mail: mreza_sobhan@yahoo.com

DOI: 10.21859/hums-240212

Received: 21.01.2017

Accepted: 28.06.2017

Keywords:

Angiolymphoid Hyperplasia
Eosinophilia
Epithelioid Hemangioma
Vascular Malformation

How to Cite this Article:

Sobhan M, Ghasemibasir H, Farshchian M. A Case Report of Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia in Forearm, Hand and Nail Bed. *Sci J Hamadan Univ Med Sci.* 2017;24(2):171-175. DOI: 10.21859/hums-240212

© 2017 Hamadan University of Medical Sciences.

Abstract

Introduction: Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE) or epithelioid hyperplasia is an uncommon condition due to benign proliferation of dermal and subdermal vessels. It is most commonly seen in young to middle-age females. Skin lesions include single or multiple red papules, plaques and nodules. It most commonly involves head and neck. Its etiology has not been determined. The ALHE lesions are usually resistant to commonly suggested treatment methods including surgery. Recurrence of treated lesions is also common.

Case Presentation: Herein, we report a 39-year-old woman who presented with multiple red papules and nodules on her forearm, hand and nail bed.

Conclusion: Condition and extension of lesions in this case is very significant. Her lesions were confirmed to be ALHE after histopathological assessment.