

<https://doi.org/10.24245/drm/bmu.v68i4.9932>

Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia: estudio epidemiológico de un centro dermatológico de referencia del occidente de México

Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Epidemiology of a reference dermatological center in western Mexico.

Michelle Alcocer Salas,¹ Liliana Alcázar García,² Sofía Carolina García Sánchez,³ Omar Galaviz Chaparro,² Paola Sánchez Márquez,³ María de las Mercedes Hernández Torres,⁴ Juan Gabriel Barrientos García⁴

Resumen

OBJETIVO: Describir las características clínicas y epidemiológicas de los casos de hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia atendidos en el Instituto Dermatológico de Jalisco Dr. José Barba Rubio, México.

MATERIALES Y MÉTODOS: Estudio observacional, descriptivo y retrospectivo, en el que se analizó la base de datos del Instituto Dermatológico de Jalisco Dr. José Barba Rubio y se incluyeron todos los pacientes con diagnóstico de hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia atendidos entre 2011 y 2023.

RESULTADOS: Se incluyeron 9 pacientes, 6 de ellos eran mujeres; la edad promedio fue de 36 años. La topografía más frecuente fue la cara con neoformaciones exofíticas; la evolución promedio fue de 6.12 meses. Con el tratamiento tres pacientes mostraron recidiva a los 166 días en promedio.

CONCLUSIONES: La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia es una enfermedad poco frecuente, por lo que la sospecha diagnóstica es improbable. Las características clínicas y epidemiológicas coinciden con la bibliografía. En este estudio se descubrió una morfología distinta a lo descrito en otras series; tiene características histopatológicas únicas. Este estudio representa la serie más grande reportada hasta el momento en México.

PALABRAS CLAVE: Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia; hemangioma; malformación vascular.

Abstract

OBJECTIVE: To describe the clinical and epidemiological characteristics of the cases of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia treated at the Dermatological Institute of Jalisco Dr. Jose Barba Rubio, Mexico.

MATERIALS AND METHODS: An observational, descriptive and retrospective study was carried out, in which the database of the Dermatological Institute of Jalisco Dr. Jose Barba Rubio was analyzed and included all patients with a diagnosis of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia treated from 2011 to 2023.

RESULTS: Nine patients were counted, 6 females, with an average of 36 years old. The most frequent affected area was the face with exophytic neoformations; the average evolution was 6.12 months. With treatment, 3 patients experienced recurrence at an average of 166 days.

¹ Residente de tercer año de Dermatología.

² Residente de segundo año de Dermatología.

³ Dermatóloga.

⁴ Dermatólogo y dermatopatólogo. Instituto Dermatológico de Jalisco Dr. José Barba Rubio, Zapopan, Jalisco, México.

Recibido: marzo 2024

Aceptado: abril 2024

Correspondencia

Michelle Alcocer Salas
malcocersalas@gmail.com

Este artículo debe citarse como:

Alcocer-Salas M, Alcázar-García L, García-Sánchez SC, Galaviz-Chaparro O, Sánchez-Márquez P, Hernández-Torres MM, Barrientos-García JG. Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia: estudio epidemiológico de un centro dermatológico de referencia del occidente de México. Dermatol Rev Mex 2024; 68 (4): 465-471.

CONCLUSIONS: *Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia is a rare entity, diagnostic suspicion is unlikely. Clinical and epidemiological characteristics matched the literature; we discovered a morphology distinct from what has been described in other series; it possesses unique histopathological features. This study represents the largest series reported in Mexico to date.*

KEYWORDS: *Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia; Hemangioma; Vascular malformation.*

ANTECEDENTES

La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia, también llamada hemangioma epitelioides, es un trastorno vasoproliferativo benigno poco común que se distingue por lesiones papulares o nodulares, de coloración eritematosa, violácea o parda, que pueden ser solitarias o múltiples y afectan principalmente la cabeza y el cuello. Estas lesiones pueden ser asintomáticas o acompañarse de prurito, dolor y sangrado.¹

La mayoría de los casos documentados se encuentran en Asia, Europa y Estados Unidos, con poca información al respecto en México.¹

MATERIALES Y MÉTODOS

Estudio observacional, descriptivo, retrospectivo, en el que se analizó la base de datos del Instituto Dermatológico de Jalisco Dr. José Barba Rubio, Jalisco, México, y se incluyeron todos los pacientes con diagnóstico de hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia atendidos de 2011 a 2023.

RESULTADOS

Se registraron 9 pacientes, de los que 6 eran mujeres con intervalo de edad de 14 a 59 años y edad promedio de 36 años. **Figura 1**

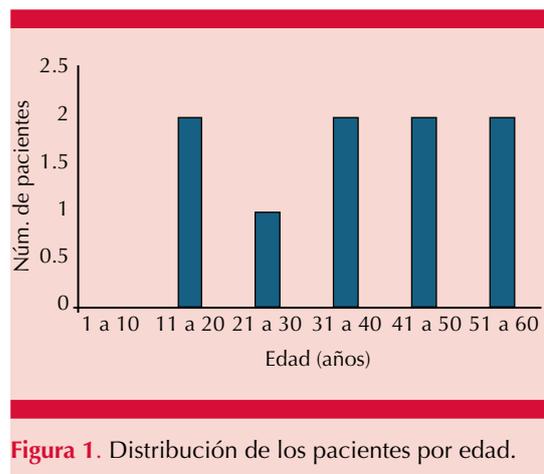


Figura 1. Distribución de los pacientes por edad.

La topografía afectada con más frecuencia fue la cara en 6 casos (**Figura 2**). La morfología característica fue de neoformaciones exofíticas eritematovioláceas, lisas, de aspecto vascular; sin embargo, en un caso se reportó como una placa violácea. **Figura 3**

El tiempo de evolución promedio fue de 6.12 meses, con mediana de 4.5 meses y desviación estándar de 1.777. **Figura 4**

Se llevó a cabo el estudio histopatológico de las lesiones con tinción de hematoxilina y eosina en todos los casos en el que se observó en la



Figura 2. Neoformaciones papulares en la región temporal y preauricular.

epidermis hiperqueratosis focal con acantosis discreta, en la dermis un infiltrado perivascular constituido por linfocitos y eosinófilos, así como células endoteliales epitelioides prominentes y vasos de diámetro variable. **Figura 5**

El tratamiento que recibieron los pacientes fue una combinación de criocirugía en quienes tenían afección facial más cirugía convencional en quienes tenían otra topografía afectada. En el seguimiento se documentó recidiva en tres casos y en otros tres se perdió el seguimiento. El tiempo promedio a la recidiva fue de 166 días. **Cuadro 1**

DISCUSIÓN

El término hiperplasia angioliñoide con eosinofilia fue acuñado por Wells y Whimster² en 1969 para describir una neoplasia caracterizada por una proliferación florida de vasos sanguíneos por células endoteliales, con denso infiltrado inflamatorio de linfocitos, eosinófilos y mastocitos. Posteriormente, en 1982, Weiss y Enzinger³ introdujeron el término de hemangioma epiteliode dejando clara su naturaleza benigna.

La patogenia de esta enfermedad sigue siendo motivo de investigación porque existen múltiples

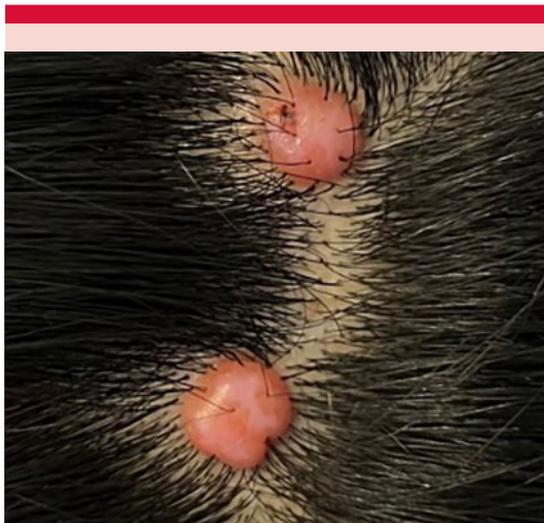


Figura 3. Acercamiento de las lesiones nodulares.

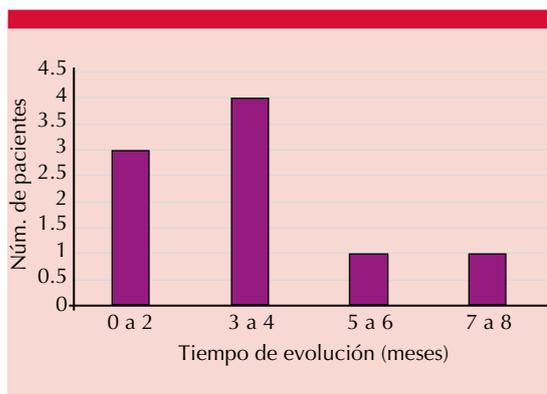


Figura 4. Distribución de los pacientes por tiempo de evolución.

hipótesis al respecto, algunas apoyan que se trata de un proceso reactivo a alguna neoplasia o proceso infeccioso e, incluso, la han relacionado con el virus de inmunodeficiencia humana.^{4,5,6}

Olsen y colaboradores⁶ efectuaron un estudio descriptivo de las características clínico-patológicas de 116 pacientes con hiperplasia angioliñoide con eosinofilia y en el reporte de

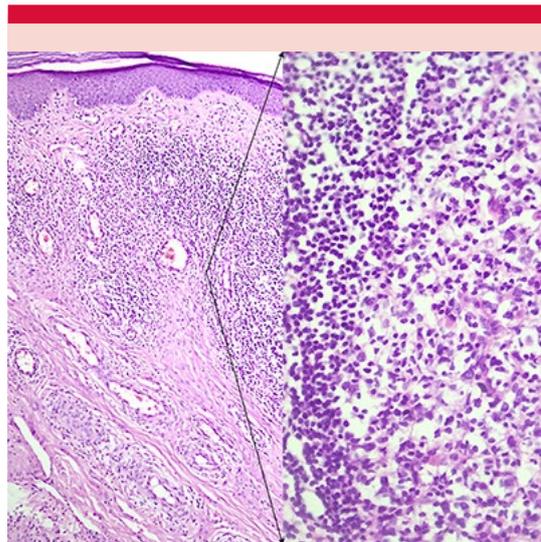


Figura 5. Estudio histopatológico teñido con hematoxilina y eosina. Epidermis con hiperqueratosis focal, acantosis discreta; en la dermis se observa un infiltrado perivascular constituido por linfocitos y eosinófilos, así como células endoteliales epitelioides prominentes y vasos de diámetro variable.

las biopsias documentaron estructuras arteriales entre las vénulas, así como proliferación de células endoteliales, lo que sugiere derivaciones arteriovenosas y puede ayudar a explicar su patogénesis y comportamiento biológico de esta afección.

En cuanto a la epidemiología, Adler y su grupo¹ llevaron a cabo en 2016 una revisión sistemática en la que incluyeron 416 estudios, con un total de 908 pacientes procedentes de 59 países, lo que indica la distribución cosmopolita de esta dermatosis. A pesar de lo anterior, se ha documentado con mayor frecuencia en Asia, Europa y Estados Unidos, de tal forma que el 27.4% de los pacientes son asiáticos y el 24.7% de raza blanca.

En esta serie todos los pacientes eran hispanos y ninguno tenía ascendencia asiática o de raza

Cuadro 1. Variables categóricas analizadas (n = 9)

Variable	Frecuencia
Sexo	
Masculino	3
Femenino	6
Grupo de edad (años)	
1 a 10	0
11 a 20	2
21 a 30	1
31 a 40	2
41 a 50	2
51 a 60	2
Topografía	
Piel cabelluda	1
Cara	6
Pabellón auricular	1
Cuello	1
Tronco	0
Extremidades	0
Cantidad de lesiones	
1 a 5	8
5 a 10	0
10 a 15	1
Manifestaciones clínicas	
Prurito y sangrado	5
Dolor y sangrado	2
Asintomáticos	2
Diagnósticos de envío	
Granuloma piógeno	3
Hiperplasia angioliñoide con eosinofilia	2
Quiste epidérmico	2
Tumor de anexos	1
Neoformación vascular	1
Tratamiento	
Criocirugía y cirugía convencional	3
Electrocirugía	1
Esteroides tópicos	1
No disponible	1
Recidivas	
Sí	3
No	3
No disponible	3

blanca. Además, en la serie de Adler¹ la edad media al diagnóstico fue de 36 años sin mostrar predominio por sexo, pero en esta serie el 66.6% de los pacientes eran mujeres.

Existe poca información de la epidemiología en México, la mayor parte proviene de casos aislados o series de casos pequeñas. Al respecto, en 2011 De Anda Juárez y colaboradores⁷ reportaron 2 casos de hiperplasia angioliñoide con eosinofilia: el primero se trataba de un hombre de 31 años con una dermatosis que afectaba el pliegue retroauricular izquierdo y estaba constituida por múltiples neoformaciones exofíticas, de aspecto angiomaso cubiertas con costra hemática. El segundo caso era un hombre de 47 años, con una dermatosis que afectaba el párpado superior derecho, cerca del canto interno y estaba constituida por tres neoformaciones papulares sésiles milimétricas, eritematosas de aspecto angiomaso, de superficie lisa. En ambos casos se estableció el diagnóstico con estudio histopatológico, los pacientes no tenían antecedentes relevantes para su enfermedad y fueron tratados con escisión quirúrgica de la lesión.

Caballero Centeno y su grupo⁸ reportaron el caso de una mujer de 42 años con una dermatosis que afectaba la región nasal y el surco nasogeniano izquierdo y estaba constituida por múltiples neoformaciones subcutáneas, hemiesféricas, eritemato-violáceas de 0.3-1.5 cm de diámetro e indicaron tratamiento con pentoxifilina con alivio de la dermatosis a los 3 meses. Más tarde, en 2020, Puebla Miranda y su grupo⁹ comunicaron el caso de un hombre de 59 años con hiperplasia angioliñoide con eosinofilia que afectaba la región preauricular derecha y morfológicamente estaba constituida por varias neoformaciones de aspecto nodular, lobuladas y eritematosas que recibieron crioterapia con resultados terapéuticos adecuados.

En 2021 Rodríguez Mena y colaboradores¹⁰ comunicaron la serie más grande de México

hasta ese momento con tres casos de hiperplasia angioliñoide con eosinofilia que fueron tratados exitosamente con criocirugía.

En cuanto a la topografía, esta dermatosis suele afectar con mayor frecuencia la cabeza y el cuello, menos comúnmente el tronco, las extremidades superiores, el pene, la mucosa oral y el colon, y su morfología corresponde a pápulas o nódulos que pueden ser únicos o múltiples, a veces agrupados, eritematosos, violáceos o pardos.¹¹

En este estudio la topografía más afectada fue la cara en 6 de 9 casos y en ellos también estaba afectada otra topografía, como la región preauricular y el cuello; en la mayoría de los casos era la única dermatosis con promedio de lesiones de 2.55. Además, en cuanto a la morfología, la mayoría se manifestó como un nódulo o como pápulas. En un caso la dermatosis se manifestó como una placa única y esta última morfología no se había descrito en otras series revisadas.

Debido a su naturaleza vascular el síntoma más común es el prurito, seguido de sangrado con traumatismo menor y dolor y se ha demostrado una relación estadísticamente significativa entre la cantidad de lesiones y los síntomas de los pacientes, de tal manera que los sujetos con lesiones múltiples suelen referir prurito y sangrado ($p < 0.001$), lo que es congruente con los hallazgos de esta serie donde el signo más frecuente en los pacientes con más de una lesión fue el sangrado (5 de 9) seguido del prurito (3 de 9).

Para el diagnóstico es indispensable el estudio histopatológico en el que encontraremos una proliferación bien delimitada de vasos sanguíneos de diferentes tamaños revestidos por células endoteliales redondeadas. Estas células histiocitoides endoteliales están aumentadas de volumen con abundante citoplasma claro y eosinofílico y un núcleo vesicular prominente.¹¹

Entre los diagnósticos diferenciales a considerar está principalmente la enfermedad de Kimura porque anteriormente se consideraba que ésta y la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia formaban parte de un espectro clínico en el que la primera mostraba, además, afección sistémica. Otros diagnósticos a considerar por la morfología de estas lesiones son: angiosarcoma, hemangioendotelioma epitelióide, sarcoma de Kaposi y granuloma piógeno.¹²

En la población de este estudio el granuloma piógeno fue la principal sospecha diagnóstica en 3 de 9 casos, seguido por el quiste epidérmico en 2 de 9 y con menor frecuencia la neoformación vascular sin especificación, los tumores anexiales y las cicatrices queloides.

Existe una gran brecha en el campo terapéutico debido a la baja incidencia de esta enfermedad, por lo que no hay ensayos clínicos prospectivos a gran escala.^{1,13} La escisión quirúrgica ha sido el tratamiento más común, con media de días libres de enfermedad de 4.2 años. Se ha documentado que la falla del tratamiento, definida como el alivio incompleto de la enfermedad o recurrencia después del tratamiento, es menor con la escisión quirúrgica, el láser de dióxido de carbono, el láser intermedio de argón, los corticosteroides intralesionales y la criocirugía, pero la recurrencia con estos procedimientos sigue siendo, incluso, del 50% en la mayoría de los casos.

Las modalidades terapéuticas con mayor recidiva son el tratamiento con corticosteroides sistémicos (87.8%) y tópicos (98.2%). Además, la recidiva se ha relacionado con menor edad del paciente al inicio de la dermatosis, mayor duración de la enfermedad, lesiones múltiples o bilaterales y con síntomas como prurito, dolor y sangrado.^{1,3}

Otras opciones terapéuticas menos estudiadas son la cirugía micrográfica de Mohs, y tratamientos tópicos como imiquimod, tacrolimus,

isotretinoína, bleomicina intralesional e interferón α -2a.^{1,11,13,14} En esta serie, a los pacientes con afección de áreas cosméticas se les trató con criocirugía, mientras que la cirugía convencional se reservó para los casos que ya habían mostrado recidiva o tenían afección de áreas no cosméticas. En estos pacientes la recurrencia con cirugía convencional ocurrió en 2 de 9 pacientes que se mantendrán en vigilancia evolutiva para estimar la cifra de manera más exacta.

La principal fortaleza de este estudio es que se trata de la serie más grande de México a la fecha, lo que ayuda a comprender la epidemiología de esta dermatosis en nuestro país; sin embargo, al ser un estudio epidemiológico, no es posible sacar conclusiones respecto al tratamiento porque para ello es necesario realizar ensayos clínicos.

CONCLUSIONES

La hiperplasia angiolofoide con eosinofilia es una enfermedad de origen no muy claro; la hipótesis más aceptada es la que apoya que se trata de una neoplasia vascular verdadera. Se distingue por neoformaciones papulares o nodulares eritematosas que suelen afectar la cabeza y su diagnóstico se establece por medio del estudio histopatológico. Es necesario excluir la afección sistémica porque en este contexto se trataría de la enfermedad de Kimura.

Debido a su baja prevalencia, que puede estar subestimada, hasta el momento no existen guías terapéuticas; la información existente proviene de casos aislados. Sin embargo, en esta serie y en otras revisadas se han visto buenos resultados con la cirugía convencional para tratar topografías no cosméticas y criocirugía en áreas cosméticas o en caso de múltiples lesiones.

Es necesario identificar y documentar los casos existentes para poder generar más información que permita entender mejor el comportamiento de esta dermatosis.

REFERENCIAS

1. Adler BL, Krausz AE, Minuti A, Silverberg JI, Lev-Tov H. Epidemiology and treatment of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE): A systematic review. *J Am Acad Dermatol* 2016; 74 (3): 506-12.e11. doi:10.1016/j.jaad.2015.10.011
2. Wells GC, Whimster IW. Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Br J Dermatol* 1969; 81 (1): 1-14. doi:10.1111/j.1365-2133.1969.tb15914.x
3. Weiss SW, Enzinger FM. Epithelioid hemangioendothelioma: a vascular tumor often mistaken for a carcinoma. *Cancer* 1982; 50 (5): 970-981. doi:10.1002/1097-0142(19820901)50:5<970::aid-cnrcr2820500527>3.0.co;2-z
4. D'Offizi G, Ferrara R, Donati P, Bellomo P, Paganelli R. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophils in HIV infection. *AIDS* 1995; 9 (7): 813-814. doi:10.1097/00002030-199507000-00023
5. Nonose R, Priolli DG, Cardinali IA, Máximo FR, Galvão PS, Martinez CA. Epithelioid hemangioma of the colon: a case report. *Sao Paulo Med J* 2008; 126 (5): 294-296. doi:10.1590/s1516-31802008000500011
6. Olsen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. A clinicopathologic study of 116 patients. *J Am Acad Dermatol* 1985; 12 (5 Pt 1): 781-796. doi:10.1016/s0190-9622(85)70098-9
7. De Anda-Juárez MC, Gómez-Villa R. Hiperplasia angiolofoide con eosinofilia: reporte de 2 casos. *Dermatología CMQ* 2011; 9 (3): 170-175.
8. Caballero CA, Navarrete FG, Martínez OJA. Hiperplasia angiolofoide con eosinofilia. *Rev Cent Dermatol Pascua* 2013; 22 (1): 27-30.
9. Puebla-Miranda M, Vega-Memije ME, Machado-Chavelas A, et al. Hiperplasia angiolofoide con eosinofilia. *Dermatol Rev Mex* 2020; 64 (2): 201-205.
10. Rodríguez-Mena A, Soto-Ortiz JA, Gómez-González BA, et al. Hiperplasia angiolofoide con eosinofilia. Abordaje terapéutico de tres casos. *Dermatol Rev Mex* 2021; 65: S31-S36. <https://doi.org/10.24245/dermatolrevmex.v65id.5417>
11. Guo R, Gavino AC. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Arch Pathol Lab Med* 2015; 139 (5): 683-686. doi:10.5858/arpa.2013-0334-RS
12. Zou A, Hu M, Niu B. Comparison between Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: case reports and literature review. *J Int Med Res* 2021; 49 (9): 3000605211040976. doi:10.1177/03000605211040976
13. Guinovart RM, Bassas-Vila J, Morell L, Ferrándiz C. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: a clinicopathologic study of 9 cases. *Actas Dermosifiliogr* 2014; 105 (2): e1-e6. doi:10.1016/j.ad.2013.03.009
14. Trivedi A, Norris I, DeWitt CM, Goldman GD. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia treated with Mohs micrographic surgery. *Dermatol Online J* 2019; 25 (12): 13030/qt1t75v80t.