

Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia: respuesta a la criocirugía y al tratamiento con corticoesteroides sistémicos e intralesionales

Forero-Pedraza J^{1,2}, Uribe-Ortiz P^{1,2}, Tovar-Cock A²

Resumen

La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia es una proliferación vascular benigna, poco frecuente, que afecta el cuero cabelludo y la cara de adultos jóvenes, en la que aparecen lesiones de aspecto angiomatoso. Su histopatología se caracteriza por la proliferación de células endoteliales histiocitoides con infiltrado inflamatorio linfocítico y eosinofílico. Comunicamos el caso de una paciente de 24 años de edad, con múltiples pápulas de aspecto vascular y nódulos de tamaño entre 0.5 y 2 cm, localizados en el rostro, que aparecieron durante su primer embarazo. El estudio histológico permitió confirmar el diagnóstico. Se dio tratamiento con criocirugía, con la que se logró la remisión completa de las pápulas e infiltraciones con corticoesteroides intralesionales, con remisión parcial de los nódulos. Se comunica este caso por tratarse de una paciente con antecedente de embarazo, asociación descrita, con respuesta favorable a los tratamientos prescritos.

PALABRAS CLAVE: hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia, crioterapia, glucocorticoides.

Dermatol Rev Mex 2018 January;62(1):56-61.

Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: Response to cryosurgery and treatment with systemic and intralesional corticosteroids.

Forero-Pedraza J^{1,2}, Uribe-Ortiz P^{1,2}, Tovar-Cock A²

Abstract

Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia is a rare, benign vascular proliferation that affects the scalp and face of young adults, in which angiomatous lesions appear. Its histopathology is characterized by the proliferation of histiocytoid endothelial cells with inflammatory lym-

¹ Fundación Universitaria Sanitas, Bogotá, DC, Colombia.

² Hospital Universitario, Centro Dermatológico Federico Lleras Acosta ESE, Bogotá, DC, Colombia.

Recibido: junio 2017

Aceptado: septiembre 2017

Correspondencia

Dra. Paola Uribe Ortiz
paouribe81821@gmail.com

Este artículo debe citarse como

Forero-Pedraza J, Uribe-Ortiz P, Tovar-Cock A. Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia: respuesta a la criocirugía y al tratamiento con corticoesteroides sistémicos e intralesionales. Dermatol Rev Mex. 2018 ene;62(1):56-61.

phocytic and eosinophilic infiltrates. We report the case of a 24-year-old woman who had multiple papules with vascular appearance and nodules of 0.5 to 2 cm, which were located on the face and appeared during her first pregnancy. The histological study allowed us to confirm the diagnosis. A treatment with cryosurgery was performed, resulting in complete remission of the papules and infiltrations with intralesional corticosteroids, with partial remission of the nodules. This case is presented due to the history of pregnancy of the patient, association described, and a favorable response to the treatments prescribed.

KEYWORDS: angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia; cryotherapy; glucocorticoids

¹ Fundación Universitaria Sanitas, Bogotá, DC, Colombia.

² Hospital Universitario, Centro Dermatológico Federico Lleras Acosta ESE, Bogotá, DC, Colombia.

Correspondence

Dra. Paola Uribe Ortiz

paouribe81821@gmail.com

ANTECEDENTES

La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia es una proliferación vascular poco frecuente, benigna, pero potencialmente desfigurante.¹ En términos clínicos, se caracteriza por pápulas o nódulos superficiales entre 0.5 y 3 cm de diámetro, de aspecto vascular, localizados frecuentemente en la cabeza y el cuello, con predominio en la región preauricular.² Puede ser asintomática o provocar sangrado espontáneo, crecimiento progresivo, dolor, sensación pulsátil y prurito.^{1,2} La hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia es más común en mujeres, con edad promedio de inicio a los 30 años.³

El examen histopatológico de la dermis o hipodermis muestra proliferación de vasos de pequeño calibre revestidos por células endoteliales aumentadas de tamaño, con infiltrado inflamatorio compuesto por eosinófilos, linfocitos y plasmocitos.^{1,4}

Se han descrito diferentes tratamientos, pero debido a su baja incidencia, no existe un tratamiento estandarizado. Comunicamos el caso de una mujer con hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia, con antecedente de embarazo y pla-

nificación con acetato de medroxiprogesterona, que tuvo respuesta terapéutica satisfactoria a la crioterapia y a los corticoesteroides intralesionales.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 24 años de edad, con cuadro de cuatro meses de evolución de aparición de múltiples lesiones tumorales que iniciaron en la región preauricular derecha, con posterior extensión a los párpados, la frente y la región temporal del cuero cabelludo ipsilateral, permanentes, pruriginosas, de crecimiento progresivo, con ocasional sangrado espontáneo y sensación pulsátil. Las lesiones aparecieron durante el tercer trimestre de su primer embarazo. Al momento de la consulta la paciente estaba en el segundo mes posparto y recibía planificación con acetato de medroxiprogesterona. En el examen físico se evidenciaron múltiples pápulas bien definidas de aspecto vascular, de superficie lisa y nódulos entre 0.5 y 2 cm de diámetro, sin adenopatías (**Figura 1**).

Con sospecha de hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia se realizó una biopsia de piel, que



Figura 1. Imágenes clínicas previas y posteriores al tratamiento. **A-B.** Pápulas bien definidas de aspecto vascular, de superficie lisa y nódulos de entre 0.5 y 2 cm de diámetro. **C-D.** Desaparición de las lesiones después del tratamiento.

evidenció proliferación vascular con células endoteliales prominentes con vacuolas citoplasmáticas, eosinófilos y linfocitos en todo el infiltrado, no se observó afectación de los folículos linfoides (**Figura 2**). El hemograma mostró leucocitos de $8790/\text{mm}^3$ y valor absoluto de eosinófilos de $527/\text{mm}^3$.

Con el diagnóstico de hiperplasia angiolineoide con eosinofilia, se inició tratamiento con corticoesteroides sistémicos (40 mg/día) en descenso progresivo durante tres meses, sin obtener mejoría. Se realizó una sesión semanal de criocirugía por tres semanas y se observó remisión completa de las pápulas (tamaño y síntomas). Además, se hicieron tres infiltraciones en las lesiones nodulares con acetónido de triamcinolona en concentración del 100%, con intervalos de tres semanas, con lo que se obtuvo remisión parcial de las lesiones (disminución significativa del tamaño y alivio completo de los síntomas). La paciente no ha tenido recurrencia después de seis meses.

DISCUSIÓN

La hiperplasia angiolineoide con eosinofilia fue descrita inicialmente por Wells y Whimster en

1969, como una neoplasia caracterizada por proliferación de vasos recubiertos por células endoteliales grandes con infiltrado inflamatorio compuesto por linfocitos, mastocitos y eosinófilos.¹ En términos clínicos, se distingue por pápulas o nódulos de color rojo (cereza), localizados principalmente en la cabeza y el cuello, que pueden ser estéticamente desfigurantes y son más frecuentes en mujeres entre 20 y 50 años de edad.¹⁻³

La patogénesis de la enfermedad no está totalmente aclarada. Se ha sugerido que forma parte de un proceso vascular proliferativo benigno en respuesta a varios estímulos, como el embarazo,⁵ el aumento de las concentraciones séricas de estrógenos,⁶ traumatismos,⁷ infestación por parásitos,⁸ malformaciones arteriovenosas y la infección por el virus herpes humano tipo 8, este último con estudios y resultados contradictorios.^{3,9,10} Asimismo, algunos autores consideran que se trata de una verdadera neoplasia de las células endoteliales y otros han identificado la existencia de clonalidad de células T,¹¹ lo que plantea la hiperplasia angiolineoide con eosinofilia como un posible trastorno linfoproliferativo de bajo grado, en lugar de una condición reactiva.⁹⁻¹¹

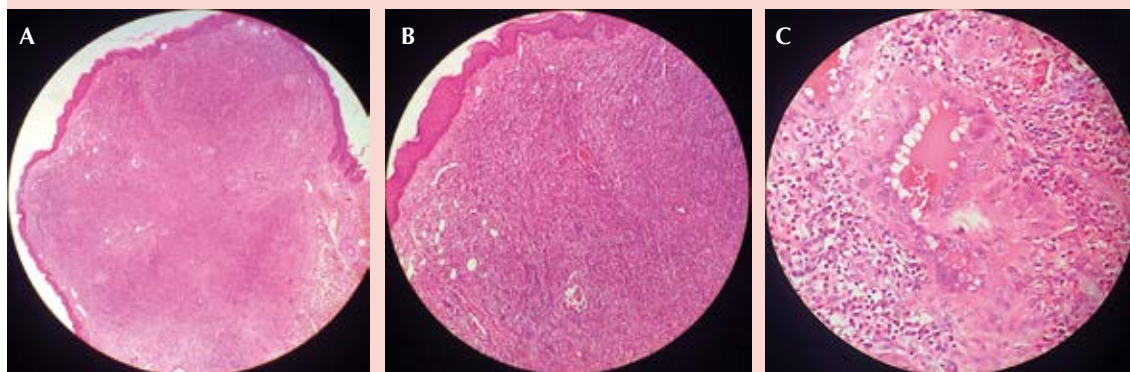


Figura 2. Imágenes histológicas. **A.** Fragmentos de piel con epidermis indemne y lesión con aspecto de domo localizada en la dermis. Hematoxilina-eosina 4X. **B.** Proliferación vascular compuesta por vasos de paredes gruesas y luces irregulares, que están revestidos por células endoteliales ligeramente aumentadas de tamaño con citoplasma eosinófilo claro y núcleos ovoides de cromatina granular. Hematoxilina-eosina 10X. **C.** Proliferación vascular e infiltrado inflamatorio severo compuesto por linfocitos, histiocitos y abundantes eosinófilos. Hematoxilina-eosina 40X.

El principal diagnóstico diferencial clínico e histopatológico de la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia es la enfermedad de Kimura; sin embargo, existen algunas características específicas que por lo general ayudan a diferenciar estos dos padecimientos (**Cuadro 1**).^{4,12} La enfermedad de Kimura probablemente representa una respuesta alérgica o autoinmunitaria que afecta casi exclusivamente a los hombres asiáticos. Se manifiesta con nódulos profundos o lesiones subcutáneas de mayor tamaño, a menudo con linfadenopatía concomitante, y siempre acompañada por eosinofilia periférica.¹²⁻¹⁴ En términos histológicos, la enfermedad de Kimura se caracteriza por densa fibrosis intersticial, agregados de eosinófilos, linfocitos y folículos linfoides reactivos. La fibrosis generalmente es incipiente; asimismo, se asocia con hiperplasia vascular menos marcada.^{15,16} Además, la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia debe distinguirse de la hiperplasia linfática cutánea, los linfomas de linfocitos B cutáneos, los hemangiomas, los angiosarcomas, los granulomas telangiectásicos, el sarcoma de Kaposi nodular, la angiomatosis bacilar y la bartonelosis.^{4,9,12,15}

Para el tratamiento de la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia debe tenerse en cuenta la extensión y el número de lesiones. Se recomienda la resección quirúrgica de lesiones únicas y en caso de lesiones múltiples o extensas, se ha reportado la administración de glucocorticoides sistémicos, interferón 2 alfa y agentes citotóxicos, aunque los resultados no son satisfactorios.^{2,12} También se ha utilizado láser colorante pulsado y láser de dióxido de carbono;¹⁷ sin embargo, la recurrencia parcial o completa de las lesiones es frecuente y ocurre, en promedio, a los 4.8 meses en la mayoría de los pacientes.^{2,17} Existen reportes de remisión completa con corticoesteroides intralesionales luego de una infiltración mensual durante seis meses.¹⁰ La criocirugía, la bleomicina, el imiquimod y el tacrolimus se han prescrito con respuesta variable.^{2,16} En raras ocasiones ocurre regresión espontánea.

En conclusión, la hiperplasia angioliñoide con eosinofilia es una afección infrecuente que representa un desafío para el dermatólogo debido a que no tiene un tratamiento estándar; comunicamos el caso de una paciente que

Cuadro 1. Características clínicas e histopatológicas de la hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia y la enfermedad de Kimura, como principal diagnóstico diferencial

	Hiperplasia angiolinfoide con eosinofilia	Enfermedad de Kimura
Sexo	Mujeres	Hombres
Edad	20-50 años	20-30 años
Etnia	Occidentales	Asiáticos
Lesiones	Pápulas-nódulos eritematosos	Nódulos subcutáneos
Tamaño	< 2 cm	> 2 cm
Localización anatómica	Cabeza y cuello	Cabeza y cuello
Linfadenopatía	Rara	Frecuente
Afectación de las glándulas salivales	No	Frecuente
Eosinofilia en sangre	Posible	Frecuente
IgE sérica elevada	No	Frecuente
Histopatología	Proliferación de vasos sanguíneos con células endoteliales cuboidales o aumentadas de tamaño y abundante citoplasma eosinófilo y vacuolas citoplasmáticas. Infiltrado inflamatorio: linfocitos y eosinófilos. Algunas veces histiocitos y plasmocitos. No hay fibrosis	Hiperplasia folicular reactiva con folículos prominentes (arquitectura preservada). Infiltrado inflamatorio: eosinófilos, linfocitos y mastocitos. La fibrosis es frecuente

mostró respuesta favorable al tratamiento con crioterapia y corticoesteroides intralesionales, enfoques terapéuticos que ofrecen la ventaja de fácil realización, mayor disponibilidad e incluso son menos invasivos que otras opciones terapéuticas, con lo que se logran resultados similares en términos de alivio de los síntomas, recurrencia e incluso resultados cosméticos.

REFERENCIAS

- Guo R, Gavino ACP. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Arch Pathol Lab Med 2015;139:683-6.
- 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; 74:506-12.
- Bazakas A, Solander S, Ladizinski B, Halvorson EG. Transarterial embolization followed by surgical excision of skin lesions as treatment for angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. J Am Acad Dermatol 2013;68:48-9.
- Singh P, Singh A. A rare case of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia in the submental region. J Oral Maxillofac Pathol 2013;17:311-4.
- Zarrin-Khameh N, Spoden JE, Tran RM. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia associated with pregnancy: a case report and review of the literature. Arch Pathol Lab Med 2005;129:1168-71.
- Moy RL, Luftman DB, Nguyen QH, Amenta JS. Estrogen receptors and the response to sex hormones in angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Arch Dermatol 1992;128:825-8.
- Busquets AC, Sánchez JL. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia induced by trauma. Int J Dermatol 2006; 45:1211-4.
- Chou CY, Lee WR, Tseng JT. Case of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia associated with scabies infestation. J Dermatol 2012;39:102-4.
- Bhattacharjee P, Hui P, McNiff J. Human herpesvirus-8 is not associated with angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. J Cutan Pathol 2004;31:612-5.
- Guinovart RM, Bassas-Vila J, Morell L, Ferrándiz C. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: A clinicopathologic study of 9 cases. Actas Dermosifiliograf. 2014;105:1-6.
- Kempf W, Haeflner AC, Zepter K, Sander CA, et al. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: evidence for a T-cell lymphoproliferative origin. Hum Pathol 2002; 33:1023-9.
- Fusconi M, Magliulo G, Carlesimo M, Panasi V. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Otolaryngol Head Neck Surg 2006;135:816-7.
- Chong WS, Thomas A, Goh CL. Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: two disease entities in the same patient: case report and review of the literature. Int J Dermatol 2006;45:139-45.

14. Ramchandani PL, Sabesan T, Hussein K. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia masquerading as Kimura disease. *Br J Oral Maxillofac Surg* 2005;43:249-52.
15. Zeitouni NC, Hanna S, Loree TR, Brooks J, Cheney RT. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: a classic clinical presentation with histologic features of angiosarcoma. *Dermatol Surg* 2002;28:772-5.
16. Huang M, Lloyd WC, O'Hara M. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: an unusual presentation in a child. *J AAPOS* 2008;12:302-4.
17. Sagi L, Halachmi S, Levi A, Amitai DB, et al. Combined pulsed dye and CO2 lasers in the treatment of angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Lasers Med Sci* 2016;31:1093-6.

Fundación para la Dermatitis Atópica (FDA) en México

Siendo la dermatitis atópica uno de los padecimientos más prevalentes, crónicos en niños, y que requiere de explicaciones precisas y apoyo a la investigación, para todo eso se creó la Fundación México. Tiene como sede el prestigiado Servicio de Dermatología del Instituto Nacional de Pediatría, y lo lidera su jefa: la Dra. Carola Durán McKinster, y está conformado por su selecto grupo de especialistas.

Sus objetivos son claros y precisos: afiliación de pacientes, dar información, conducir talleres, ayuda directa a los pacientes. Su página web es:

<http://www.fundacion-dermatitis-atopica.com.mx/>

Misión y Visión de la FDA

“Su misión. Poner al alcance de los niños mexicanos con Dermatitis Atópica y sus familiares información clara, precisa y profesional sobre qué es, cómo tratar y cómo superar la enfermedad, basados en un enfoque no sólo de salud clínica sino psicológica y social.”

“Su visión. Convertir a la Fundación para la Dermatitis Atópica en la entidad de referencia más relevante del país, para dirigir y orientar tanto a pacientes y familiares, como a otras entidades clínicas y sociales que puedan identificar esta enfermedad en su entorno, a fin de brindar los cuidados clínicos y emocionales de más niños con Dermatitis Atópica, para devolverles una mejor calidad de vida que redunde en una mejor integración y un mejor desempeño de estos pequeños en su entorno social.”