

# Úlcera eosinofílica bucal: una entidad simuladora de patología maligna

## Eosinophilic ulcer of the oral mucosa: a clinical simulator of malignancy

Carla Chessé<sup>1</sup>, Jorgelina Vidal<sup>2</sup>, Emilce Rivarola<sup>3</sup>, Carolina Innocenti<sup>4</sup> y Viviana Parra<sup>5</sup>

### RESUMEN

La úlcera eosinofílica bucal (UEB) es una patología rara, de carácter benigno y autolimitado. Se manifiesta entre la quinta y la sexta década de la vida, aunque también puede presentarse en lactantes en relación con la erupción de los dientes incisivos. En lo que respecta a su etiopatogenia, no hay certezas y algunos autores la proponen dentro del es-

pectro linfoproliferativo. Se describen dos casos clínicos de esta entidad. **Palabras clave:** enfermedad de Riga-Fede, úlcera eosinofílica, úlcera bucal.

Dermatol. Argent. 2018, 24 (2): 93-96

### ABSTRACT

*Oral eosinophilic ulcer is a rare, benign and self-limiting disease. Most cases take place between the fifth and sixth decade of life, but it may occur during childhood in relation to the eruption of incisors. Its etiopathogenesis remains unknown but some authors propose it within the lymph-*

*oproliferative spectrum. Two clinical cases of this entity are described. **Key words:** Riga-Fede disease, eosinophilic ulcer, oral ulcer.*

Dermatol. Argent. 2018, 24 (2): 93-96

<sup>1</sup> Médica Residente de Tercer Año de Dermatología

<sup>2</sup> Jefa de Residentes, Servicio de Dermatología. Docente de la Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Provincia de Mendoza, Argentina.

<sup>3</sup> Doctora en Medicina, Médica Dermatóloga, Profesora adjunta de la Facultad de Odontología, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Provincia de Mendoza, Argentina

<sup>4</sup> Médica Dermatopatóloga, Servicio de Dermatología

<sup>5</sup> Médica Dermatóloga, Jefa del Servicio de Dermatología. Profesora Titular de Dermatología, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Cuyo, Mendoza, Provincia de Mendoza, Argentina  
Hospital Luis Lagomaggiore, Mendoza, Provincia de Mendoza, Argentina

Contacto del autor: Carla Chessé

E-mail: carlachesse@gmail.com

Fecha de trabajo recibido: 18/12/2017

Fecha de trabajo aceptado: 15/6/2018

Conflicto de interés: las autoras declaran que no existe conflicto de interés.

## INTRODUCCIÓN

La úlcera eosinofílica bucal (UEB) es una entidad poco conocida, benigna y autolimitada de la mucosa bucal<sup>1</sup>. Se la menciona, además, como granuloma traumático de la lengua, granuloma eosinofílico o granuloma ulcerativo traumático con eosinofilia estromal,

entre otras denominaciones<sup>2-7</sup>. Se caracteriza por ser una lesión ulcerada de bordes indurados, casi siempre asintomática, que puede simular una patología maligna. Se localiza con mayor frecuencia en la lengua, aunque puede afectar otras regiones de la boca<sup>8</sup>.

## SERIE DE CASOS

### Caso clínico 1

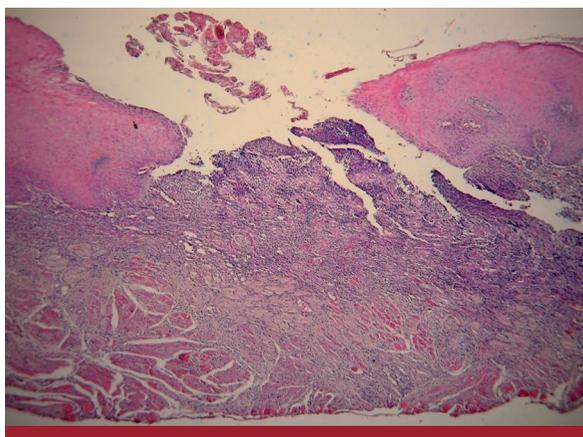
Una mujer de 51 años, sin antecedentes patológicos conocidos ni hábitos tóxicos, consultó por presentar una lesión asintomática en la lengua, de 30 días de evolución. En el examen físico se constató, en la región lateral izquierda de la lengua, la presencia de una tumoración ulcerada de aproximadamente 1,5 × 1 cm, de bordes indurados e infiltrada al tacto, sin adenopatías locorregionales ni otros hallazgos en el examen dermatológico (Foto 1). La analítica general no mostró alteraciones y las serologías para virus de la inmunodeficiencia humana (HIV), virus de la hepatitis B (HBV) y virus de la hepatitis C (HCV) y la VDRL fueron negativas.



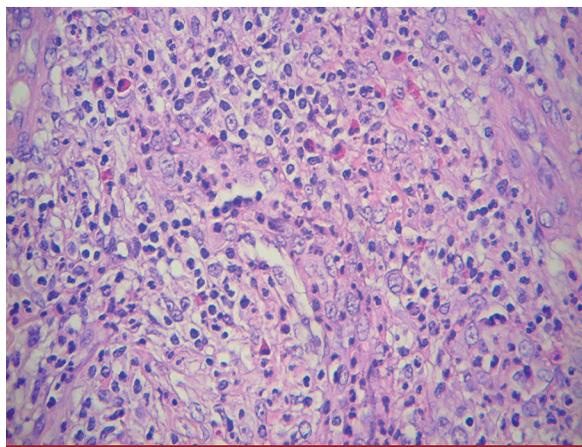
**FOTO 1:** Tumoración ulcerada, de bordes indurados e infiltrados al tacto, de aproximadamente 1,5 x 1 cm de diámetro.

Se realizaron una biopsia escisional con extirpación completa de la lesión y el estudio histopatológico, el cual informó: epitelio con ulceración, corion con tejido de granulación con un infiltrado inflamatorio con histiocitos, linfocitos y abundantes eosinófilos, estos últimos presentes hasta en el intersticio muscular (Fotos 2 y 3).

Con estos hallazgos, se arribó al diagnóstico de UEB. Un año después, la paciente no presenta nuevas lesiones.



**FOTO 2:** Epitelio ulcerado, corion con infiltrado inflamatorio granulomatoso compuesto principalmente por abundantes eosinófilos (HyE, 100X).



**FOTO 3:** Presencia de eosinófilos en el infiltrado inflamatorio (HyE, 400X).

### Caso clínico 2

Un varón de 28 años, sin antecedentes patológicos conocidos ni hábitos tóxicos, consultó por la aparición de una lesión asintomática en la lengua, de 20 días de evolución. En el examen físico se constató la presencia de un tumor ulcerado en el borde lateral izquierdo de la lengua, de aproximadamente 1 cm de diámetro e indurado al tacto. La lesión se localizaba a la altura del elemento dentario 37, que faltaba en el paciente. Presentaba, además, en el ángulo izquierdo de la boca, una pequeña ulceración compatible con una queilitis angular (Foto 4). El resto del examen físico fue negativo, incluida la palpación de los ganglios en busca de adenopatías. La analítica general no presentó alteraciones y la serología para HIV, HBV y HCV y la VDRL fueron negativas.

Se realizó la extirpación completa de la lesión. El estudio histopatológico de la pieza quirúrgica mostró hallazgos similares a los del caso 1.

A partir de la historia clínica, el examen físico y el estudio histopatológico se arribó al diagnóstico de UEB y se realizó el acondicionamiento de las piezas dentarias, sin observarse lesión en los controles posteriores.



**FOTO 4:** Tumor ulcerado, indurado al tacto, de aproximadamente 1 cm de diámetro. Nótese la ausencia del elemento dentario 37.

## COMENTARIOS

La UEB es una lesión benigna, crónica y autolimitada<sup>1-3,6,8-10</sup>. Puede ocurrir tanto en las mujeres como en los varones, sin haber consenso sobre el predominio de sexo<sup>1,2,5,11</sup>. La edad de presentación más frecuente es entre la quinta y la séptima década de la vida, aunque se ha informado su desarrollo en pacientes de menor edad, como en el segundo caso<sup>1,2,5,6</sup>.

Lesiones similares se describieron en la lengua de lactantes, inicialmente por Riga, en 1881, y luego por Fede, en 1890, y han sido denominadas enfermedad de Riga-Fede<sup>1-4,7</sup>. Estas úlceras traumáticas se caracterizan por ubicarse en la zona ventral de la lengua y fisiopatológicamente se explican por el trauma ocasionado por los incisivos primarios<sup>2,3,5,6,8,12,13</sup>.

En los adultos, se caracteriza por ser una lesión tumoral o nodular que, en forma rápida, se ulcera y presenta bordes indurados y fondo fibrinoso. De manera excepcional, puede presentarse como lesiones múltiples<sup>1,5,13</sup>.

Su morfología y su rápido crecimiento hacen sospechar clínicamente patologías malignas, como el carcinoma espinocelular<sup>6,8,10,13</sup>. Tiende a localizarse principalmente en la lengua, sobre todo en el dorso y los bordes laterales, aunque con menos frecuencia también puede afectar la mucosa yugal, los labios, el paladar, la mucosa vestibular y el piso de la boca<sup>1,2,5,6,8,10,13</sup>.

Como manifestaciones clínicas asociadas se describió la presencia de dolor, incluso en el 17-100% de los casos este puede ser intenso y dificultar la fonación, masticación y deglución. También los pacientes pueden presentar adenopatías, disfonía o pérdida de peso<sup>1,5,6,9</sup>. Se han comunicado, además, lesiones de eritroplaquia o leucoplaquia como forma de presentación<sup>5</sup>.

La fisiopatogenia no es clara, pero al afectar solo la cavidad bucal, se presume que el entorno interviene como factor determinante<sup>1,2,4,7,14</sup>. Se cree que el trauma cumple un papel importante como desencadenante inicial de la lesión, aunque es referido en menos del 50% de los pacientes<sup>1,3,4,6-8,10,13,14</sup>. La principal hipótesis es que el daño repetido produce alteraciones del tejido e introduce microorganismos, toxinas o proteínas ajenas a este que inducen una reacción inmunitaria local, con activación de linfocitos y producción de interleuquinas (IL-5, IL-1) y factor de necrosis tumoral alfa (TNF- $\alpha$ ), que intervienen en la quimiotaxis de los eosinófilos y mastocitos<sup>2,5-8,11</sup>. Estas células activadas liberan sustancias, como proteína básica mayor, neurotoxina derivada de eosinófilos, entre otras, que colaboran con el daño y degeneración de los tejidos, incluidas las fibras musculares. Asimismo, debido al hallazgo histológico de células mononucleares atípicas, CD30<sup>+</sup> en algunos casos de UEB, se ha propuesto

que esta patología podría incluirse en los trastornos linfoproliferativos<sup>1,2,4,7,8,13,14</sup>. La histopatología es característica, con la presencia de un infiltrado linfocitario difuso con predominio de eosinófilos que se extienden profundamente entre las fibras musculares de la lengua. Como se mencionó, también se describió la presencia de células mononucleares con núcleos atípicos, que no fueron halladas en los dos casos analizados<sup>1,2,4,5,7-10,13,14</sup>.

El diagnóstico diferencial clínico debe plantearse con patologías malignas, entre ellas, carcinoma espinocelular, tumores de glándulas salivales, metástasis y linfomas. También se deben descartar patologías infecciosas, como sífilis, herpes y tuberculosis, además de patologías granulomatosas y autoinmunitarias<sup>1,8,10,13,14</sup>. Cabe destacar que los principales diagnósticos diferenciales histológicos son el granuloma histiocítico atípico, la hiperplasia angioloide con eosinofilia, la enfermedad de Kimura y el trastorno linfoproliferativo primario cutáneo CD30<sup>+</sup> con manifestación oral<sup>3,9</sup>.

La UEB es una lesión que tiende a la autoinvolución, que se produce aproximadamente al mes de su aparición o después de la realización de la biopsia. Esto se ha relacionado con la producción de trauma y la presencia de eosinófilos en el infiltrado inflamatorio, por lo que se propone que, así como estos factores intervienen en la fisiopatología de la lesión, también producirían estímulos para la autocuración<sup>1-6,8,13</sup>.

El manejo es multidisciplinario. El odontólogo cumple un rol fundamental al acondicionar la boca y eliminar el traumatismo local. Además, según la sintomatología del paciente, se valora la evaluación junto con el médico dermatólogo y el clínico para excluir alteraciones sistémicas<sup>5</sup>. Es destacable que el tratamiento de la mayoría de los pacientes puede ser conservador. Se propone el uso de analgésicos orales y tópicos como primera línea de tratamiento, optándose así por una conducta expectante. Cuando el cuadro no evoluciona favorablemente o se plantean dudas diagnósticas, se realiza la exéresis quirúrgica de la lesión, lo cual además permite realizar el estudio histopatológico y confirmar el diagnóstico. Este fue el tratamiento de elección en los pacientes de los casos analizados. Otra alternativa es administrar corticosteroides tópicos, intralesionales o sistémicos, aunque su uso es discutido. Los antibióticos son de utilidad cuando las lesiones se sobreinfectan<sup>3,5,8,10</sup>. En general la afección no recurre, a excepción de ciertos casos en los que persiste el trauma<sup>5,6,8,10,13</sup>. En nuestros pacientes no hubo recidivas.

Podemos concluir que la UEB es una lesión benigna y autolimitada, que por sus características clínicas

obliga a realizar el diagnóstico diferencial con entidades malignas. Resaltamos la importancia de los hallazgos histopatológicos e inmunohistoquímicos, que permiten considerarla un proceso reactivo.

Valoramos la necesidad del trabajo interdisciplinario tanto para descartar los principales diagnósticos diferenciales como para realizar el tratamiento adecuado.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Didona D, Paolino G, Donati M, Didona B, et al. Eosinophilic ulcer of the tongue—Case report. *An Bras Dermatol* 2015;90:88-90.
2. Fonseca FP, De Andrade BA, Coletta RD, Vargas PA, et al. Clinicopathological and immunohistochemical analysis of 19 cases of oral eosinophilic ulcers. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol* 2013;115:532-540.
3. Bortoluzzi MC, Passador-Santos F, Capella DL, Manfro G, et al. Eosinophilic ulcer of oral mucosa: a case report. *Ann Stomatol (Roma)* 2012;3:11-13.
4. Damevska K, Gocev G, Nikolovska S. Eosinophilic ulcer of the oral mucosa: report of a case with multiple synchronous lesions. *Am J Dermatopathol* 2014;36:594-596.
5. Misterska M, Dmochowski M, Szulczyńska-Gabor J, Walkowiak H, et al. Eosinophilic ulcer of the oral mucosa: report of a child with CD30-negative cells in an infiltration on the lower lip. *Med Sci Monit* 2010;16:95-99.
6. Lingaraju N, Gaddelingiah YB, Shivalingu MM, Khanum N. Eosinophilic ulcer of the tongue: a rare and confusing clinical entity. *BMJ Case Re* 2015; doi: 10.1136/bcr-2015-210107.
7. Akhavan A, Mosavi A, Jarrahi M, Navabii H. Eosinophilic ulcer of the tongue in an 80-year-old Iranian woman after a psychologically stressful event. *BMJ Case Rep* 2013; doi: 10.1136/bcr-2012-008487.
8. Shen W-R, Chang JY-F, Wu Y-C, Cheng S-J. Oral traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia: A clinicopathological study of 34 cases. *J Formos Med Assoc* 2015;114:881-885.
9. Segura S, Pujol RM. Eosinophilic ulcer of the oral mucosa: a distinct entity or a non-specific reactive pattern? *Oral Dis* 2008;14:287-295.
10. Sharma B, Koshy G, Kapoor S. Traumatic ulcerative granuloma with stromal eosinophilia: a case report and review of pathogenesis. *J Clin Diagn Res* 2016;10:ZD07-ZD09.
11. Retamar RA, Chames C. Enfermedades eosinofílicas cutáneas. *Dermatol Argent* 2002;8:183-193.
12. Yacovone L, Roberson D, Ng MW. Riga-Fede disease: a rare sublingual traumatic ulcerative lesion in a child. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2012;146:333-334.
13. Dhanrajani P, Cropley PW. Oral eosinophilic or traumatic ulcer: A case report and brief review. *Natl J Maxillofac Surg*. 2015;6:237-240.
14. Abdel-Naser MB, Tsatsou F, Hippe S, Knolle J, et al. Oral eosinophilic ulcer, an Epstein-Barr virus-associated CD30+ lymphoproliferation? *Dermatology* 2011;222:113-118.

## DERMATÓLOGOS JÓVENES

### ★ Caso Clínico: LESIÓN ANULAR EN EL ANTEBRAZO

Agustina Bennesch y Belén Salvaneschi

Unidad de Dermatología, Hospital de Infecciosas Dr. Francisco J. Muñiz, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina

**Antecedentes:** Mujer de 25 años oriunda de La Paz, Bolivia.

**Enfermedad actual:** Dermatitis en el antebrazo izquierdo de un año de evolución.

**Examen físico:** En la cara posterior del antebrazo izquierdo (Foto 1) presenta una placa única, anular, de 5 cm de diámetro, de límites netos, elevados y eritematosos, con un centro de piel que parece normal. Asintomática.



#### Estudios complementarios:

Laboratorio: sin particularidades.

Baciloscopia: negativa.

Histopatología: Foto 2.

1) ¿Cuál es su diagnóstico más probable en este caso?

- a. Sarcoidosis.
- b. Granuloma anular localizado.
- c. Lepra tuberculoide.
- d. Tiña corporal.
- e. Eritema anular centrífugo.

2) ¿Qué estudios solicitaría para realizar el diagnóstico de esta patología?

- a. Baciloscopia, biopsia de piel para histopatología y estudio de la sensibilidad.

- b. Examen micológico, directo y cultivo.
  - c. Examen parasitológico y biopsia de piel.
  - d. Biopsia de piel y laboratorio completo, incluidas evaluación tiroidea y glucemia.
  - e. Radiografía de tórax.
- 3) En relación con la patología que presenta la paciente, ¿cuál de las siguientes afirmaciones es correcta?
- a. El órgano más frecuentemente comprometido es el pulmón.
  - b. Es una forma clínica poco frecuente en nuestro medio y se relaciona con una mejor respuesta inmune celular.
  - c. El tratamiento con corticosteroides tópicos puede enmascarar el diagnóstico y desencadenar manifestaciones floridas y atípicas.

- d. Es más frecuente en las mujeres, con predominio en los niños y los adultos jóvenes.
  - e. Es característico que las lesiones se extiendan rápidamente en forma centrífuga.
- 4) ¿Qué tratamiento realizaría?
- a. Antimicótico tópico.
  - b. Esquema OMS para paucibacilares o ROM, durante 6 meses.
  - c. El tratamiento sistémico se realiza en función del compromiso pulmonar o de otros órganos nobles.
  - d. Encontrar el factor desencadenante.
  - e. Corticosteroides tópicos de alta potencia.

La solución en la página 116