

Acquired lymphangioma of the vulva – clinical and dermoscopic presentation

Nabyty naczynek limfatyczny sromu – obraz kliniczny i dermoskopowy

Krzysztof G. Sadko¹, Anna Płaszczyńska², Martyna Sławińska², Monika M. Konczalska³, Michał Sobjanek²

¹Dermatological Students Scientific Association, Department of Dermatology, Venereology and Allergology, Faculty of Medicine, Medical University of Gdansk, Gdansk, Poland

²Department of Dermatology, Venereology and Allergology, Faculty of Medicine, Medical University of Gdansk, Gdansk, Poland

³Clinica Dermatologica, Gdansk, Poland

¹Dermatologiczne Studenckie Koło Naukowe przy Katedrze i Klinice Dermatologii, Wenerologii i Alergologii, Wydział Lekarski, Gdański Uniwersytet Medyczny, Gdańsk, Polska

²Katedra i Klinika Dermatologii, Wenerologii i Alergologii, Wydział Lekarski, Gdański Uniwersytet Medyczny, Gdańsk, Polska

³Clinica Dermatologica, Gdańsk, Polska

Dermatol Rev/Przeł Dermatol 2022, 109, 138–141

DOI: <https://doi.org/10.5114/dr.2022.117983>

ABSTRACT

CORRESPONDING AUTHOR/ ADRES DO KORESPONDENCJI:

Krzysztof G. Sadko
Katedra i Klinika Dermatologii,
Wenerologii i Alergologii
Wydział Lekarski
Gdański Uniwersytet Medyczny
Gdańsk, Polska
tel.: +48 663814461
E-mail: krzysztof.sadko94@gmail.com

Acquired lymphangioma, also called acquired cutaneous lymphangiectasia or secondary lymphangioma, is a relatively rare and benign tumour consisting of dilated superficial lymphatic vessels. We present 50-year-old patient diagnosed with acquired lymphangioma of the vulva and discuss the diagnostic methods of the disease, including dermoscopy.

Key words: acquired lymphangioma, dermoscopy, vascular neoplasia.

STRESZCZENIE

Nabyty naczynek limfatyczny skóry, nazywany również nabytą limfangiektazją skórną (*acquired cutaneous lymphangiectasia* – ACL) lub wtórnym naczyńniakiem limfatycznym, jest stosunkowo rzadkim i łagodnym schorzeniem charakteryzującym się powstawaniem guzów utworzonych przez poszerzone powierzchowne naczynia limfatyczne. W pracy przedstawiono 50-letnią pacjentkę z rozpoznaniem naczyniaka limfatycznego sromu oraz omówiono metody diagnostyczne stosowane w tej chorobie, w tym badanie dermoskopowe.

Słowa kluczowe: wtórny naczynek limfatyczny, dermoskopia, nowotwór naczyniowy.

INTRODUCTION

Acquired lymphangioma, also called acquired cutaneous lymphangiectasia or secondary lymphangioma, is a relatively rare and mild tumour consisting of dilated superficial lymphatic vessels [1].

WPROWADZENIE

Nabyty naczynek limfatyczny skóry, nazywany również nabytą limfangiektazją skórną (*acquired cutaneous lymphangiectasia* – ACL) lub wtórnym naczyńniakiem limfatycznym, jest stosunkowo rzad-

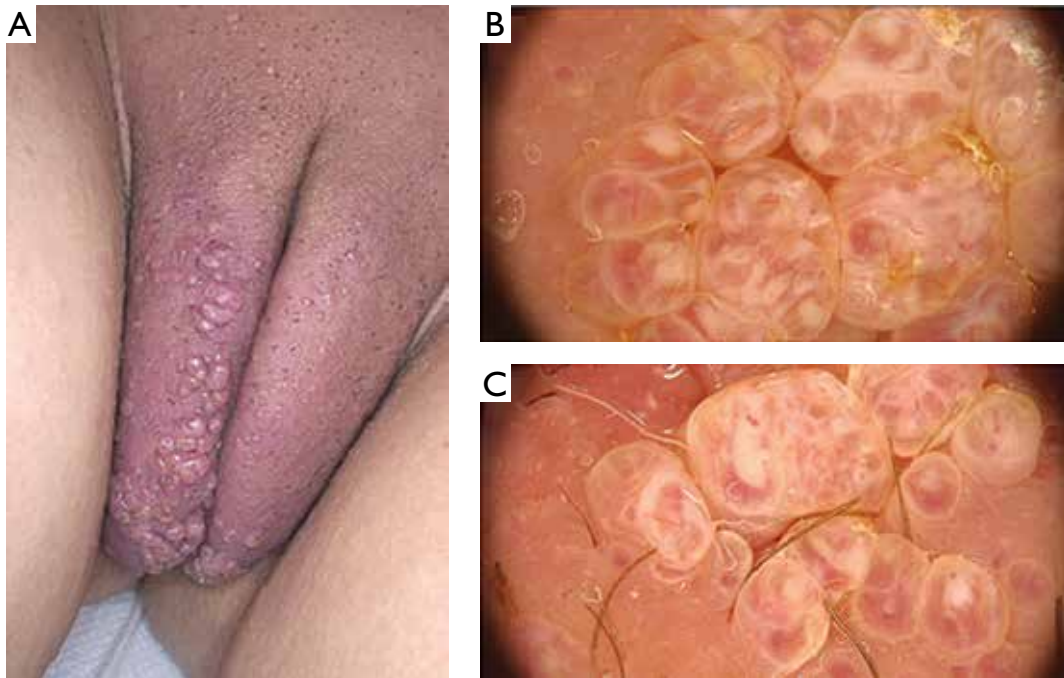


Figure 1. **A** – Clinical presentation – numerous pink-transparent papules and vesicles clustered around the labia majora; accompanying swelling of the labia is notable. **B, C** – Dermoscopic image – visible lacunes (pink-white or pink-yellowish) separated by white lines; the presence of polymorphic vessels is found within the lacunas

Rycina 1. **A** – Obraz kliniczny – liczne różowo-przezroczyste grudki i pęcherzyki o skupionym układzie w okolicy warg sromowych większych; zwraca uwagę towarzyszący obrzęk warg sromowych. **B, C** – Obraz dermoskopowy – widoczne lakuny (*lacunes/clods*; barwy różowo-białej lub różowo-żółtawej) poprzedzielane białymi liniami; w obrębie lakun stwierdza się obecność naczyń polimorficznych

CASE REPORT

A 50-year-old female patient was admitted to the Department of Dermatology because of multiple nodules in the area of labia majora, accompanied by local swelling, discomfort and pain (fig. 1). These changes appeared about 12 months earlier, while about 20 years earlier the patient had undergone surgical treatment and radiotherapy for cervical cancer. In addition, there was a history of pharmacologically compensated hypothyroidism. Based on the clinical and dermoscopic picture, lymphangioma was suspected, which was confirmed by histopathological examination. Nodules were vaporized with a CO₂ laser under general anesthesia, obtaining a satisfactory clinical effect.

DISCUSSION

Acquired lymphangioma is a relatively rare and mild condition associated with development of superficially dilated, irregular lymphatic channels lined with endothelial cells [1–3]. It is clinically manifested by the presence of clustered transparent, flesh-colored maculo-vesicular lesions, which in the literature is referred to as the “frog spawn” [1–3]. Secondary lymphangioma arises as a consequence of damage

kim i łagodnym schorzeniem charakteryzującym się powstawaniem guzków w wyniku poszerzenia powierzchniowych naczyń limfatycznych [1].

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka 50-letnia została przyjęta do Kliniki Dermatologii z powodu mnogich guzków okolicy warg sromowych większych, którym towarzyszył lokalny obrzęk, dyskomfort i dolegliwości bólowe (ryc. 1). Zmiany pojawiły się około 12 miesięcy wcześniej, natomiast około 20 lat wcześniej chora przeżyła leczenie chirurgiczne oraz radioterapię z powodu raka szyjki macicy. Ponadto w wywiadzie stwierdzono wyrównaną farmakologicznie niedoczynność tarczycy. Na podstawie obrazu klinicznego i dermoskopowego wysunięto podejrzenie naczyńki limfatycznego, co potwierdzono w badaniu histopatologicznym. Guzki poddano waporyzacji laserem CO₂ w znieczuleniu ogólnym, uzyskując satysfakcjonujący efekt kliniczny.

OMÓWIENIE

Nabyty naczynek limfatyczny jest stosunkowo rzadkim i łagodnym schorzeniem, w przebiegu którego powstają powierzchownie rozszerzone, nie-

and/or obstruction of lymphatic vessels in a particular anatomical region. Possible causes of the condition are infections, injuries, Crohn's disease, pregnancy, scleroderma, neoplasms, radiotherapy, previous surgery and keloids [1, 2]. Occurrence of AL in the vulva area was most often described in patients who had undergone cervical cancer treatment [4, 5].

On the basis of the analysis of 45 cases of lymphangioma in a dermoscopic examination Zaballos *et al.* [3] described features such as lacunes/clods (observed in 89% of cases) of various colors (red, yellow, white, multicolored), vessels of various morphology (82%) and white lines (47%). In 19 cases, the presence of hypopyon sign was found, with two colors coexisting in a single lacuna – the dark component was associated with blood sedimentation, and the lighter one with the presence of dilated lymphatic channels. In other studies on dermoscopic presentation of AL of the vulva, presence of structures such as lacunas and white lines was also most often found [6–8].

Confocal AL microscopy images show a honeycomb pattern with no abnormal cells at the epidermal level. On the other hand, in the upper part of the dermis, dark cavities with slowly circulating light elements, separated by septum, can be observed [9]. Histopathological examination reveals acanthosis, which corresponds to the presence of white lines in the dermoscopic image, and dilated lymphatic vessels visible as lacunas in dermoscopy [3, 7].

The differential diagnosis of AL in the anogenital area should include, mainly, molluscum contagiosum, viral warts, genital herpes and papillary skin tuberculosis [1, 2]. Dermoscopy and confocal microscopy are useful non-invasive methods facilitating differentiation of acquired lymphangioma. The final diagnosis is made on the basis of a histopathological examination.

In the treatment of lymphangioma, laser therapy (CO₂ laser and ablative erbium-yag fractional laser), surgical excision, electrocoagulation, cryodestruction, radiotherapy and sclerotherapy are used [2, 5, 10]. Regardless of the treatment method used, however, relapses are often observed.

CONFLICT OF INTEREST

The authors declare no conflict of interest.

regularne kanały limfatyczne wyścielone płaskimi komórkami śródbłonka [1–3]. Klinicznie manifestuje się obecnością przezroczystych, cielistych zmian grudkowo-pęcherzykowych o skupionym układzie, co w piśmiennictwie określane jest jako „objaw żabiego skrzeku” [1–3]. Wtórny naczylniak limfatyczny powstaje jako następstwo uszkodzenia i/lub niedrożności naczyń limfatycznych w danej okolicy anatomicznej. Wśród przyczyn wymienia się: infekcje, urazy, chorobę Leśniowskiego-Crohna, ciążę, twardzinę, nowotwory, radioterapię, poprzedzający zabieg chirurgiczny oraz keloidy [1, 2]. Wystąpienie AL w okolicy sromu opisywano najczęściej u pacjentek po przebytych leczeniu raka szyjki macicy [4, 5].

Zaballos i wsp. [3] na podstawie analizy 45 przypadków naczylniaka limfatycznego w badaniu dermoskopowym opisywali takie cechy, jak lakuny (*lacunes/clods*; obserwowane w 89%) o różnym zabarwieniu (czerwone, żółte, białe, wielobarwne), naczynia o różnej morfologii (82%) oraz białe linie (47%). W 19 przypadkach stwierdzano obecność *hypopyon sign*, w którym dwa kolory współwystępują w obrębie jednej lakuny – ciemny komponent związany jest z sedymentacją krwi, jaśniejszy z obecnością poszerzonych kanałów limfatycznych. W pozostałych pracach dotyczących obrazu dermoskopowego AL sromu również najczęściej stwierdzano obecność struktur, takich jak lakuny oraz białe linie [6–8].

W obrazach mikroskopii konfokalnej AL na poziomie naskórka widoczny jest wzorec plastra miodu bez nieprawidłowych komórek. W górnej części skóry właściwej można zaobserwować ciemne jamy z wolno krążącymi jasnymi elementami, przedzielone przegrodami [9]. W badaniu histopatologicznym stwierdza się akantozę, która koresponduje z obecnością białych linii w obrazie dermoskopowym oraz poszerzone naczynia limfatyczne w dermoskopii widoczne jako lakuny [3, 7].

W diagnostyce różnicowej AL okolicy anogenitalnej należy uwzględnić przede wszystkim mięczaka zakaźnego, brodawki wirusowe, opryszczkę narządów płciowych oraz gruźlicę brodawkującą skóry [1, 2]. Dermoskopia oraz mikroskopia konfokalna stanowią użyteczne nieinwazyjne metody pomocne w różnicowaniu nabytego naczylniaka limfatycznego; ostateczne rozpoznanie ustala się na podstawie badania histopatologicznego.

W leczeniu naczylniaka limfatycznego stosowano laseroterapię (laser CO₂ oraz ablacyjny laser frakcyjny erbowo-yagowy), wycięcie chirurgiczne, elektrokoagulację, kriodestrukcję, radioterapię oraz skleroterapię [2, 5, 10]. Niezależnie od zastosowanej metody leczenia, często obserwuje się jednak nawrót choroby.

KONFLIKT INTERESÓW

Autorzy nie zgłaszają konfliktu interesów.

References

Piśmiennictwo

1. **Bhat R.M., Saldanha C.S., Kambil S.M., Dandakeri S.:** Cutaneous lymphangiectasia of the vulva secondary to tuberculosis. *Indian J Sex Transm Dis* 2012, 33, 35-37.
2. **Hamida M.B., Baccouche D., El Fekih N.:** Lymphangiectasia of the vulva, treatment with CO2 laser. *Indian J Dermatol Venereol Leprol* 2012, 78, 122.
3. **Zaballos P., Del Pozo L.J., Argenziano G., Karaarslan I.K., Landi C., Vera A., et al.:** Dermoscopy of lymphangioma circumscriptum: a morphological study of 45 cases. *Australas J Dermatol* 2018, 59, e189-e193.
4. **Chang M.B., Newman C.C., Davis M.D., Lehman J.S.:** Acquired lymphangiectasia (lymphangioma circumscriptum) of the vulva: clinicopathologic study of 11 patients from a single institution and 67 from the literature. *Int J Dermatol* 2016, 55, e482-e487.
5. **Luu Y.T., Kimmis B.D., Bodine J.S., Gloyeske N.C., Dai H.:** Malignancy-associated acquired vulvar lymphangioma circumscriptum: a clinicopathologic study of 71 cases. *J Cutan Pathol* 2022, 49, 426-433.
6. **Errichetti E., Pegolo E., De Francesco V.:** Acquired lymphangiectasia of the vulva. *J Dtsch Dermatol Ges* 2015, 13, 237-239.
7. **Komatsu H., Umegaki-Arao N., Futei Y., Iwabuchi E., Ishizaki S., Tanaka M.:** Two cases of acquired lymphangioma: dermoscopic-histopathologic correlation between irregular vessels on lacunae. *J Dermatol* 2021, 48, E506-E507.
8. **Mansouri S., Mai S., Ismaili N., Benzekri L., Hassam B.:** Acquired vulvar lymphangioma circumscriptum: a report of 3 cases. *Our Dermatol Online* 2019, 10, 156-158.
9. **Verzi A.E., Lacarrubba F., Tedeschi A., Micali G.:** Localized acquired lymphangiectasias after breast surgery: enhanced non-invasive diagnosis using dermoscopy and reflectance confocal microscopy. *Skin Res Technol* 2020, 26, 205-208.
10. **Stull C.M., Rakita U., Wallis L., Kronic A.:** Successful treatment of acquired vulvar lymphangiectasia with 1% polidocanol sclerotherapy. *Acta Derm Venereol* 2021, 101, adv00520.

Received: 27.04.2022

Accepted: 20.06.2022

Otrzymano: 27.04.2022 r.

Zaakceptowano: 20.06.2022 r.

How to cite this article

Sadko K.G., Płaszczyńska A., Sławińska M., Konczalska M.M., Sobjanek M.: Acquired lymphangioma of the vulva – clinical and dermoscopic presentation. *Dermatol Rev/Przegl Dermatol* 2022, 109, 138–141. DOI: <https://doi.org/10.5114/dr.2022.117983>.