

## CASO CLÍNICO

# Liquen plano erosivo vulvar asociado a granuloma de sílice: reporte de un caso

## *Vulvar erosive lichen planus associated with silica granuloma: case report*

Oscar Pereda<sup>1</sup>, Soledad de la Cruz<sup>1</sup>, Claudia Ramos<sup>1</sup>, Florencio Cortez<sup>2</sup>, Dina Carayhua<sup>3</sup>, María Sanz<sup>4</sup>

### RESUMEN

Se presenta el caso de una paciente mujer de 52 años con prurito intenso y dolor en vulva con tres años de evolución, quien usó varios tratamientos tópicos como corticoides y talco para calmar el prurito. El estudio histopatológico reveló dos patrones de infiltrado, el primero, un infiltrado liquenoide con atrofia de la epidermis compatible con liquen plano erosivo vulvar, y el segundo, un infiltrado profundo y organizado en granulomas sin necrosis caseosa, con múltiples células gigantes a cuerpo extraño y con un material cristalino en su interior que a la microscopía de luz polarizada se reveló como espículas brillantes birrefringentes compatibles con sílice. Se presenta el caso por ser la primera descripción de asociación entre liquen plano erosivo vulvar y granuloma a sílice.

**Palabras claves:** Liquen plano erosivo vulvar, Granuloma, Sílice, Talco.

### SUMMARY

We present the case of 52 year old women who had a three year history of severe itching and pain in vulva, for which she used several topical treatments such as corticosteroids and talc to soothe the itching. The histopathology study revealed two patterns of infiltration, the first, a lichenoid infiltrate with atrophy of the epidermis consistent with vulvar erosive lichen planus, and the second, a deep infiltrate organized in granulomas without caseous necrosis, with multiple foreign body giant cells and a crystalline material inside, which in polarized light microscopy revealed itself as bright birefringent spicules, compatible with silica. We present this case as the first description of an association between vulvar erosive lichen planus and silica granuloma.

**Keywords:** Vulvar erosive lichen planus, Granuloma, Silica, Talc.

## INTRODUCCIÓN

El liquen plano erosivo vulvar es una enfermedad crónica inflamatoria y cicatricial, variante de liquen plano<sup>1</sup>, en su patogenia se ha relacionado a una autoinmunidad de células T<sup>2</sup> y clínicamente se caracteriza por dolor y erosiones en el introito vulvar<sup>3</sup>. Por otro lado, el granuloma a sílice es

una rara entidad, descrita en 1916 como pseudotuberculoma silicotum<sup>4</sup>; es un granuloma a cuerpo extraño producido accidentalmente por implantación de dióxido de silicio en el tejido<sup>5</sup>, y la transformación de esta molécula a un estado coloidal es esencial para producir la respuesta granulomatosa<sup>6</sup>. No existen publicaciones nacionales, ni internacionales, que asocien ambas enfermedades.

<sup>1</sup> Médico residente de Dermatología. Hospital Nacional Daniel A. Carrión. Lima-Perú.

<sup>2</sup> Médico asistente de Dermatología. Hospital Nacional Daniel A. Carrión. Lima-Perú.

<sup>3</sup> Médico asistente de Anatomopatología. Hospital Nacional Daniel A. Carrión. Lima-Perú.

<sup>4</sup> Médico asistente de Anatomopatología. Instituto de Patología y Biología Molecular Arias Stella. Lima-Perú.  
Correspondencia: Oscar Pereda Tejada a oscararturo\_p@hotmail.com

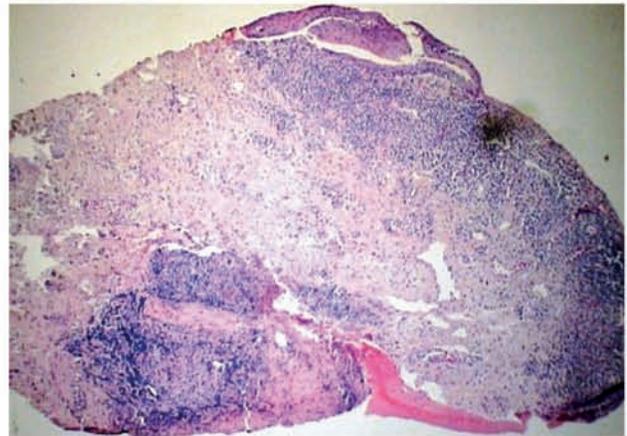
## CASO CLÍNICO

Paciente mujer de 52 años, natural y procedente de Callao-Perú, diagnosticada, 10 años antes de la consulta, de diabetes mellitus tipo II, en tratamiento irregular con insulina, y de distopia genital un año atrás.

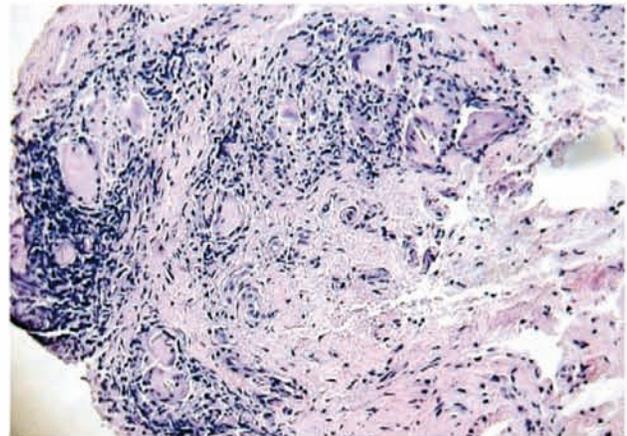
Refiere un tiempo de enfermedad de tres años, de inicio insidioso y curso progresivo, caracterizado por prurito vulvar intenso y dolor, con picos de mayor intensidad en forma intermitente. La paciente usó diferentes tratamientos tópicos, como corticoides y talco, sin mejoría alguna. Al examen físico se apreciaron manchas acrómicas con algunas zonas de piel sana en labios mayores y menores, además de máculas y pápulas eritematosas con algunas zonas de erosiones en introito vulvar, especialmente en vestibulo posterior, y maculas eritematosas en mucosa de cérvix, había también pérdida de la estructura anatómica de labios menores en la zona posterior, sin atrofia (**Fotografía 1**). Mucosa oral sin alteraciones. Hemograma, glucosa, urea y creatinina dentro de parámetros normales; en la biopsia de una lesión papular en HE se apreciaron dos tipos de infiltrados celulares (**Fotografía 2**), así como atrofia epidérmica con algunos queratinocitos apoptóticos, un infiltrado en banda que oscurecía la unión dermoepidérmica, a predominio de linfocitos, y despegamiento de la epidermis en algunas zonas (**Fotografía 3**). El cuadro fue compatible con liquen plano erosivo; se apreció también otro infiltrado granulomatoso sin necrosis caseosa en dermis profunda (**Fotografía 4**) sin relación con el primer infiltrado descrito, dicho infiltrado presentaba múltiples células gigantes multinucleadas con cuerpos extraños espiculados birrefringentes en su interior (**Fotografía 5**); en la microscopía con luz polarizada se apreciaban espículas brillantes al interior de las células gigantes multinucleadas (**Fotografía 6**), compatibles con sílice.



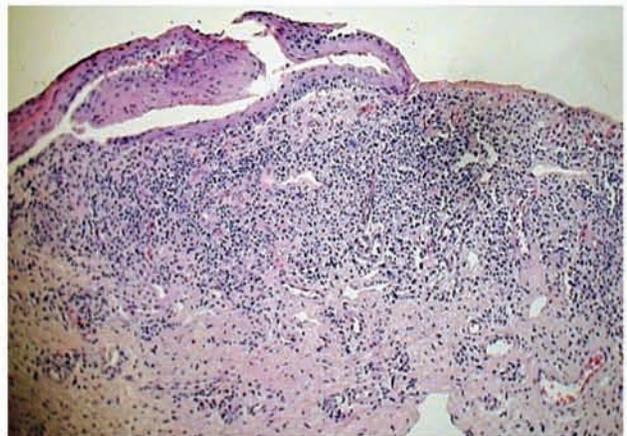
**Fotografía 1.** Manchas acrómicas con zonas de piel sana en vulva, pápulas y máculas eritematosas en introito vaginal, algunas erosiones y epitelio cervical con zonas de eritema.



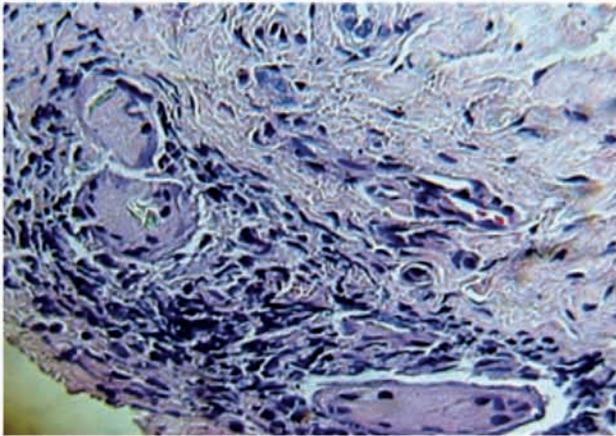
**Fotografía 2.** Dos tipos de infiltrados celulares, uno superficial en banda y otro profundo granulomatoso no caseificante. HE 10X.



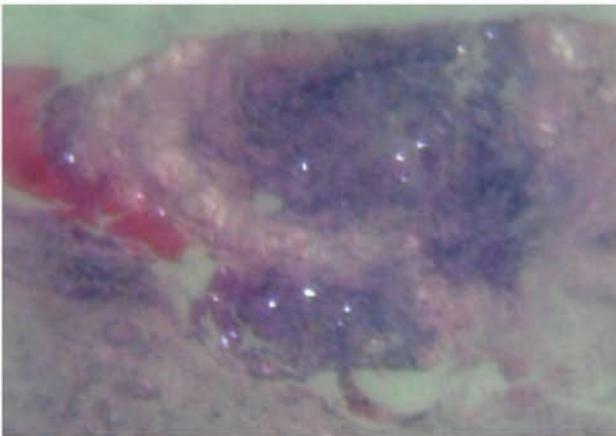
**Fotografía 3.** Atrofia epitelial, con despegamiento parcial de ésta, además de infiltrado liquenoide a predominio de linfocitos. HE 20X.



**Fotografía 4.** Infiltrado granulomatoso sin necrosis caseosa profunda, con abundantes células gigantes a cuerpo extraño. HE 20X.



Fotografía 5. Células gigantes a cuerpo extraño con material birrefringente en su interior. HE 40X.



Fotografía 6: Espículas brillantes birrefringentes al interior de las células gigantes multinucleadas. HE, luz polarizada 10X.

## DISCUSIÓN

El liquen plano vulvovaginal es una condición que se presenta alrededor del 20-25% de las mujeres que presentan liquen plano oral<sup>1</sup>, cuya incidencia es subestimada debido a que no se suele examinar rutinariamente el área genital en paciente con liquen plano, además muchas lesiones pueden ser asintomáticas<sup>3</sup>. La presentación clínica más común, y de más difícil tratamiento, es la erosiva<sup>7</sup>, la cual aparece como un eritema que compromete tanto vulva como vagina, especialmente el vestíbulo posterior vulvar<sup>8</sup>; hay además una tendencia a la reabsorción del contorno vulvar, y el epitelio vaginal se observa como parches eritematosos erosivos<sup>9</sup>, todas éstas características presentaba nuestra paciente. En algunos pacientes un cuadro severo de liquen plano erosivo puede llevar a la presencia de sinequias, con la consecuente obliteración del espacio vaginal<sup>10</sup>.

El principal diagnóstico diferencial es el liquen escleroso y atrófico<sup>10</sup>, aunque éste presenta atrofia y no hay compromiso del epitelio vaginal; hay que tener también presentes otros

diagnósticos diferenciales como el penfigoide cicatricial, la erupción fija a drogas y el eritema multiforme<sup>11</sup>.

El sílice, o dióxido de silicio, es una molécula que se puede encontrar en la arena, vidrio, granito, piedra, grava, cemento, ladrillo y asbesto, conforma del 55% al 65% del talco, lo cual lo hace una sustancia muy común<sup>4</sup>. Se han propuesto diferentes teorías por la que produce granulomas<sup>12</sup>, la teoría química propone que una reacción a cuerpo extraño se inicia al sílice coloidal, lo cual se originaría por la gradual degeneración del cuerpo extraño implantado. La segunda teoría se basa en que los cristales de sílice producen una interacción de cargas y alteran su forma, bajo estrés constante, resultando en una respuesta de los macrófagos con fibrosis y granulomas epiteloideas. La tercera teoría menciona que el fenómeno inmunológico de hipersensibilidad retardada al cuerpo extraño produce la inflamación granulomatosa<sup>4</sup>.

El antecedente del uso de algún producto o sustancia en la zona afectada es importante para llegar al diagnóstico de granuloma a cuerpo extraño<sup>5</sup>, en nuestro caso la paciente refirió haber usado talco en su afán de calmar el prurito vulvar intenso. Histológicamente el granuloma a sílice muestra una inflamación no caseosa siendo principalmente de tipo sarcoidal<sup>13</sup>. Un examen importante a realizar para identificar el cuerpo extraño es la microscopía con luz polarizada, en la cual se aprecia el sílice como espículas brillantes birrefringentes<sup>4</sup>. A pesar que sólo el análisis de rayos X de energía dispersa puede ser usado para confirmar la presencia de sílice<sup>14</sup>, muchos autores refieren que la combinación de la historia clínica, los hallazgos clínicos y la microscopía con luz simple y luz polarizada de la biopsia, es suficiente para realizar el diagnóstico<sup>4,12</sup>.

El tratamiento de liquen plano erosivo vulvar recae principalmente en los corticoides de alta potencia como el propionato de clobetasol al 0.05% en ungüento<sup>9</sup>, el cual fue usado en nuestro paciente a una dosis diaria nocturna. En caso dicho tratamiento falle hay que evaluar primero si el tratamiento fue realizado correctamente y descartar sobreinfección y vulvodinia<sup>8</sup>, luego una vez descartado éstos se puede instaurar tratamiento sistémico con prednisona a dosis de 40-60mg diarios por 2-4 semanas<sup>15</sup>; se han reportado casos de mejoría con el uso de ciclosporina tópica y tracrolimus<sup>3,16-18</sup>.

El tratamiento de los granuloma a sílice no está claramente definido<sup>12</sup>, y se ha descrito el uso de corticoides intralesionales y sistémicos<sup>19</sup>, mientras que la cirugía excisional se reserva para lesiones persistentes<sup>4</sup>.

## CONCLUSIÓN

El liquen plano vulvovaginal, en su forma erosiva, es una enfermedad dolorosa y cicatricial. No existen reportes que lo asocien con granuloma a sílice, la cual es una entidad poco común, no descrita en nuestro medio, y el motivo por el cual se discute el presente caso.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. LOTERY HE, GALASK RP. Erosive lichen planus of the vulva and vagina. *Obstet Gynecol.* 2003;101(5 Pt 2):1121-5.
2. CENDRAS J, BONNETBLANC JM. [Erosive oral lichen planus]. *Ann Dermatol Venereol.* 2009;136(5):458-68.
3. EDGARDH K. [Vulvovaginal lichen planus--diagnosis and treatment]. *Tidsskr Nor Laegeforen.* 2003;123(5):618-20.
4. KAYA TI, KOKTURK A, POLAT A, ANADOLU R, TURSEN U, IKIZOGLU G. Cutaneous silica granuloma in a child. *Pediatr Dermatol.* 2003;20(1):40-3.
5. LOMBARDI T, KUFFER R, DUBREZ B. Polishing-paste-induced silica granuloma of the gingiva. *Dermatology.* 2001;203(2):177-9.
6. FERNANDEZ-FLORES A, MONTERO MG. Does cutaneous silica granuloma develop mainly in predisposed patients? *Eur J Dermatol.* 2006;16(3):321-2.
7. BUFFON RB, LISBOA AP, CARVALHO F, MULLER KR, BONAMIGO RR. Vulvovaginal-gingival lichen planus--a rare or underreported syndrome? *Int J Dermatol.* 2009;48(3):322-4.
8. GENADRY R, PROVOST TT. Severe vulvar scarring in patients with erosive lichen planus: a report of 4 cases. *J Reprod Med.* 2006;51(1):67-72.
9. KENNEDY CM, GALASK RP. Erosive vulvar lichen planus: retrospective review of characteristics and outcomes in 113 patients seen in a vulvar specialty clinic. *J Reprod Med.* 2007;52(1):43-7.
10. MOUS HV, HELMERHORST TJ, DEN-HOLLANDER JC, VAN-DER-MEIJDEN WI. [Vulvovaginal complaints, dyspareunia and oral mucosa abnormalities: erosive lichen planus]. *Ned Tijdschr Geneesk.* 2002;146(19):881-5.
11. NEILL SM, LEWIS FM. Vulvovaginal lichen planus: a disease in need of a unified approach. *Arch Dermatol.* 2008;144(11):1502-3.
12. MOWRY RG, SAMS WM JR, CAULFIELD JB. Cutaneous silica granuloma. A rare entity or rarely diagnosed? Report of two cases with review of the literature. *Arch Dermatol.* 1991;127(5):692-4.
13. PAYNE CM, THOMAS RH, BLACK MM. From silica granuloma to scar sarcoidosis. *Clin Exp Dermatol.* 1983;8(2):171-5.
14. CHUN SI, CHO SW. Silica granuloma: scanning electron microscopy and energy dispersive X-ray microanalysis. *J Dermatol.* 1991;18(2):92-6.
15. GÖKDEMİR G, BAKSU A, TASKIN M, GÖKER N. Vulvovaginal-gingival syndrome of lichen planus: diagnostic and therapeutic challenge. *Aust N Z J Obstet Gynaecol.* 2003;43(5):389-90.
16. JANG N, FISCHER G. Treatment of erosive vulvovaginal lichen planus with methotrexate. *Australas J Dermatol.* 2008;49(4):216-9.
17. JENSEN JT, BIRD M, LECLAIR CM. Patient satisfaction after the treatment of vulvovaginal erosive lichen planus with topical clobetasol and tacrolimus: a survey study. *Am J Obstet Gynecol.* 2004;190(6):1759-63.
18. KIRTSCHIG G, VAN-DER-MEULEN AJ, ION-LIPAN JW, STOOFF TJ. Successful treatment of erosive vulvovaginal lichen planus with topical tacrolimus. *Br J Dermatol.* 2002;147(3):625-6.
19. FINLEY J, KNABB J. Cutaneous silica granuloma. *Plast Reconstr Surg.* 1982;69(2):340-3.