



Xantoma verruciforme de encía: presentación de un caso

Xanthoma verruciformis of the gingiva: case report

Xantoma verruciforme da gengiva: relato de caso

Carlos Millán-Golindano^{1, 2, 3, a, b, d} , Veronica Viloría^{1, 3, b, d} , Antonio Gagliardi-Lugo^{1, 3, b, d} , Ramsés Palma^{1, b} , Carolina Barrios-Penna^{2, c, e} 

RESUMEN

El xantoma verruciforme oral es una lesión inflamatoria benigna, de etiología desconocida. Es una lesión reactiva, no tumoral, que afecta a la mucosa oral, las semimucosas y la piel de extremidades. Su presentación clínica consiste en una lesión única, elevada, de superficie irregular. Su característica microscópica es la acumulación de macrófagos con lípidos en las papilas del tejido conectivo entre las crestas epiteliales. En el presente reporte se revisa la literatura y un caso de esta patología. Se trata de una paciente de sexo femenino de 11 años de edad, que acude a consulta con su tutor. Clínicamente, se observa una lesión única de color rosa pálido, de 4 mm de longitud aproximadamente, de forma ovalada con bordes definidos, superficie rugosa, queratinizada, de consistencia firme y base adherida al tejido. Se realiza biopsia excisional y estudio histopatológico. Se concluye que diagnosticar el xantoma verruciforme es complejo; aunque es una lesión benigna, se puede confundir con otros diagnósticos diferenciales malignos, por lo cual recomendamos evaluar la anamnesis, los factores de riesgo y establecer un plan de tratamiento acertado.

Palabras clave: xantoma, verruciforme, mucosa oral.

ABSTRACT

Oral verruciform xanthoma is a benign inflammatory lesion of unknown etiology. It is a reactive, non-tumorous lesion affecting the oral mucosa, the semi-mucosa, and the skin of the extremities. Its clinical presentation consists of a single, elevated lesion with an irregular surface. Its microscopic characteristic is the accumulation of lipid-containing macrophages in the papillae of the connective tissue between the epithelial ridges. This report reviews the literature and presents a case of this pathology. The patient is an 11-year-old female who came for consultation with her guardian. Clinically, a single pale pink lesion approximately 4 mm in length, oval in shape with defined borders, rough, keratinized surface, firm consistency, and a base adhered to the tissue was observed. An excisional biopsy and histopathological study were performed. In conclusion, the diagnosis of verruciform xanthoma is complex. Despite being a benign lesion, it can be confused with other malignant differential diagnoses. Therefore, we recommend evaluating the patient's medical history, risk factors, and establishing an accurate treatment plan.

Keywords: xanthoma, verruciform, oral mucosa.

¹ Facultad de Odontología, Universidad Santa María. Caracas, Venezuela.

² Facultad de Odontología, Universidad San Sebastián, sede Tres Pascualas. Concepción, Chile.

³ Departamento de Bucal y Maxilofacial, Hospital General del Oeste. Caracas, Venezuela.

^a Estudiante de Odontología.

^b Odontólogo.

^c Cirujano dentista.

^d Cirujano bucal y maxilofacial.

^e Magíster en Educación Superior.

RESUMIO

O xantoma verruciforme oral é una lesión reactiva non tumoral que afeta a mucosa oral, a semimucosa e a pele das extremidades. Clinicamente, presenta-se como una única lesión elevada de superficie irregular e cor rosa-clara. Sua característica microscópica é a presenza de macrófagos ricos en lípidios nas papilas do tecido conjuntivo entre as cristas epiteliais. No caso discutido, a paciente, una menina de 11 anos, procurou a clínica acompañada de seu responsable. A lesión presentaba características típicas: cor rosa-clara, formato oval, cerca de 4 mm de comprimento, bordas distintas, superficie áspera e queratinizada, consistencia firme e base adherente ao tecido. Uma biopsia excisional foi realizada e o estudo histopatolóxico confirmou o diagnóstico de xantoma verruciforme. Concluíse que o diagnóstico de xantoma verruciforme é complexo, una vez que, embora seja una lesión benigna, pode ser confundido con outras patologías malignas. Portanto, é recomendado una avaliación detallada da anamnese, factores de risco e a formulación de un plano de tratamento preciso para garantir un diagnóstico e tratamento adecuados.

Palabras chave: xantoma, verruciforme, mucosa oral.

INTRODUCCIÓN

El xantoma verrucoso o verruciforme (XV), descrito por Shafer en 1971 en la cavidad oral, es una lesión benigna mucocutánea, de etiología desconocida y de carácter infrecuente, que clínicamente suele presentar una apariencia verrucosa, con una coloración blanquecina o amarillenta y con un crecimiento polipoideo, o bien como una lesión plana de crecimiento sésil y similar a una coliflor (1, 2).

Histológicamente, el XV es caracterizado por presentar proliferación epitelial, acantosis, paraqueratosis y elongación de las crestas de Rete, asociado con una superficie verrucosa/papilar del epitelio escamoso estratificado con presencia de paraqueratina. Su rasgo característico es la presencia de células fagocíticas, que contienen una sustancia lipídica en su citoplasma, dando una apariencia «espumosa» en las papilas del tejido conectivo, subyacentes al epitelio escamoso papilomatoso, a menudo con paraqueratosis (1-6). Se proponen varios mecanismos patogénicos para explicar la presencia de estas llamadas células de xantoma en el XV (2, 3). El concepto más reciente en su etiopatogenia es un mecanismo inmune al trauma o inflamación local. Los estudios inmunohistoquímicos han demostrado que las células predominantes en el infiltrado inflamatorio son las células T. Se cree que las células espumosas son de linaje de monocitos/macrófagos, ya que son positivas ante el anticuerpo CD68 (un marcador de macrófagos) (1-3, 6-8).

En la mucosa oral, el XV se encuentra habitualmente sobre la mucosa masticatoria, en localizaciones como

el paladar duro, la encía y la mucosa bucal. Fuera de la cavidad oral y a nivel cutáneo, se ha descrito sobre todo a nivel de vulva, escroto y pene, así como en las extremidades. Usualmente, se trata de lesiones solitarias y, en ocasiones, se han descrito asociadas a otras diversas patologías mucocutáneas (liquen plano, lupus eritematoso, distrofia epidermolítica bullosa, pénfigo, enfermedad de injerto contra huésped, o incluso carcinoma de células escamosas). En el XV cutáneo se ha postulado un posible origen viral, en relación con el VPH tipo 6, detectado mediante inmunohistoquímica, PCR y microscopía electrónica en un XV escrotal. Sin embargo, la presencia de una infección por VPH en el XV de la mucosa oral no ha sido demostrada de forma certera; y numerosos trabajos han referido negatividad en la demostración de esta implicación viral (1, 2, 4, 5, 8).

REPORTE DE CASO CLÍNICO

Se trata de una paciente femenina de 11 años de edad, cuya madre refiere que la enfermedad inició dos meses antes de acudir a la consulta odontológica, cuando observó un aumento de volumen en la encía. Se describe como asintomático, no sangrante, y que no remitió ni observó tampoco cambios en su volumen, razón por la cual acude a consulta para su evaluación.

Según el examen macroscópico, se evidencia lesión exofítica en la encía vestibular libre relacionada al incisivo central superior izquierdo, de 0,4 cm de diámetro, solitaria, redondeada y delimitada, ligeramente elevada de color rosa pálido, superficie rugosa, base de implantación sésil, no dolorosa y no sangrante (figura 1).



Figura 1. Lesión exofítica en la encía vestibular relacionada a órgano dental 2.1, de 0,4 cm de diámetro, redondeada, ligeramente elevada de color blanquecino, superficie rugosa y base de implantación ancha.

Bajo anestesia local con infiltración de lidocaína se realiza una incisión en ojal de espesor total y mínimo margen de seguridad para biopsia excisional. Se remite para su estudio histopatológico, y se informa que la muestra es XV. Se describe un fragmento tisular constituido por epitelio paraqueratinizado con crestas

elongadas, hiperplasia focal y espongirosis. Por debajo, tejido conjuntivo con células grandes de citoplasma espumoso en las papilas conjuntivas; en profundidad, tejido conjuntivo fibroso con elementos vasculares e infiltrados inflamatorios crónicos con predominio linfocitario (figura 2).

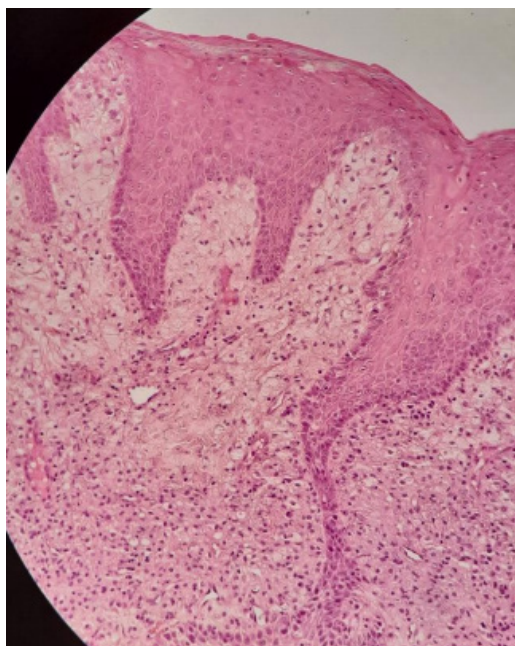


Figura 2. Fragmento tisular constituido por epitelio paraqueratinizado con crestas elongadas, hiperplasia focal y espongirosis. Por debajo, tejido conjuntivo con células grandes de citoplasma espumoso (macrófagos) en las papilas conjuntivas; en profundidad, tejido conjuntivo fibroso con elementos vasculares e infiltrados inflamatorios crónicos con predominio linfocitario.

A los dos meses del control, se evidenció encía sana y sin alteraciones (figura 3).



Figura 3. Control a los dos meses postexcisión.

DISCUSIÓN

El XV es una lesión atípica en la población mundial, cuya frecuencia es de 0,025 %, con ligera predilección por el sexo masculino. Es más frecuente en mucosa masticatoria (73,4 %) (2, 4, 9, 10). Las características clínicas incluyen una lesión solitaria, bien delimitada y asintomática, con un color variable que va desde rosa y rojo hasta blanco, amarillento o pardusco; asimismo, abarca una superficie rugosa papilar o granular con una base sésil o pediculada y márgenes delineados ligeramente elevados. El centro de la lesión puede aparecer raramente crateriforme e incluso ulcerado, y no produce signos radiográficos (2, 4, 10-13).

La patogenia de XV aún se desconoce, pero el trauma local se considera el factor etiológico principal. Se ha informado que la afección es secundaria a otras enfermedades asociadas con la alteración de la integridad epitelial (2, 4, 5, 10, 14).

Independientemente del desarrollo intraoral o extraoral, puede simular lesiones benignas y malignas que causan dilemas en sus diagnósticos clínicos. El estudio histopatológico es importante ya que puede tener un parecido al carcinoma verrugoso, al papiloma escamoso, la verruga vulgar o un fibroma de la mucosa;

por tanto, correlacionar la clínica con factores de riesgo del paciente y datos epidemiológicos permitirá determinar si el siguiente paso será una biopsia incisional o excisional.

En el caso analizado, la paciente es joven, no fumadora y no tiene ningún hábito parafuncional como bruxismo. No tiene ganglios linfáticos palpables ni historia oncológica familiar. Estos datos motivan la decisión de realizar una excisión quirúrgica con mínimos márgenes de seguridad (a pesar de que la lesión era más rojiza que blanca). Caso contrario se indicaría para un paciente que sea fumador excesivo, con historia de pérdida de peso reciente, crecimiento rápido, dolor y factores de riesgo, como antecedentes familiares positivos, inmunodeficiencias o leucoplasias, donde realizar una biopsia incisional para descartar que sea una lesión maligna o algún tipo de displasia presente sea lo más seguro para el tratamiento definitivo (4, 6, 7, 10, 12, 13, 15).

Histológicamente, el carcinoma verrugoso se puede distinguir del XV por la presencia de proliferación epitelial invasiva, atipia celular y falta de infiltrado histiocítico espumoso. Las lesiones menos agresivas, como el papiloma de células escamosas, la verruga vulgar y el condiloma acuminado, no contienen

macrófagos cargados de lípidos y exhiben un grado variable de cambio citopático viral, llamado cambio coilocítico, que se sabe que está ausente en XV. Además, las crestas de Rete en condiloma acuminado y carcinoma verrugoso tienden a ser bulbosas, a diferencia de las largas y delgadas en XV (6, 8, 12-15).

La mayoría de los casos publicados se encuentran como una lesión aislada, pero pueden estar asociados con otras enfermedades, como liquen plano, neurofibromatosis, queratosis del inhalador, pénfigo vulgar oral, carcinoma *in situ*, epidermólisis ampollosa distrófica regresiva, queratosis solares y lupus eritematoso discoide (13, 14, 16-18). Por tal motivo, el diagnóstico se hace difícil y confuso. Así, pues, el tratamiento debe ser una biopsia para establecer el diagnóstico definitivo, especialmente cuando este tumor benigno ocurre junto con lesiones o afecciones que pueden exhibir el potencial de transformación maligna en presencia de alguna displasia epitelial severa, o puede ocurrir en sitios de alto riesgo para el desarrollo de carcinoma de células escamosas, como la lengua.

Declaración de conflicto de intereses: Los autores no tienen conflicto de interés con este informe.

Aprobación de ética: Cuenta con la autorización del Servicio de Salud Hospital General del Oeste – Caracas, Venezuela.

Financiamiento: Ninguno.

Contribuciones de los autores: Todos los autores contribuyeron en la elaboración de este manuscrito.

Agradecimientos: Ninguno

Correspondencia

Autor encargado: Carlos Millán-Golindano
Dirección: Guardia Vieja 255, Of C409 - Providencia, Santiago, Chile.
Institución: Universidad San Sebastián, Concepción.
Teléfono: +56 9 4759 1573
Correo electrónico: millanmaxilofacial@gmail.com

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Hegde U, Doddawad VG, Sreeshyla H, Patil R. Verruciform xanthoma: a view on the concepts of its etiopathogenesis. J Oral Maxillofac Pathol [Internet]. 2013; 17 (3): 392-396. Disponible en: https://journals.lww.com/jpat/fulltext/2013/17030/verruciform_xanthoma_a_view_on_the_concepts_of.15.aspx
- Vera Sempere FJ. Xantoma verrucoso de mucosa oral [Internet]. 2018. Disponible en: <https://roderic.uv.es/handle/10550/66392>
- De la Cruz GP. Xantoma verruciforme oral: dos casos. Reduca [Internet]. 2014; 6(1): 207-211. Disponible en: <https://www.revistareduca.es/index.php/reduca/article/view/1683>
- Rosa EA, Amorim RFB. A rare case of giant verruciform xanthoma in the palate. Rev Gaúcha Odontol [Internet]. 2014; 62(1): 77-81. Disponible en: <https://www.scielo.br/j/rgo/a/F38cJNj5XdZpStKQSV4TYdN/?format=pdf&lang=en>
- Teixeira Rodrigues J, Santos Netto JNS, Aguiar Miranda ÁMM, De Macedo Amaral S, Ramôa Pires F. Verruciform xanthoma of the upper anterior gingiva. J Oral Diagn [Internet]. 2017; 2(1): 1-4. Disponible en: https://www.jordi.com.br/detalhe_artigo.asp?id=105
- De Andrade BAB, Agostini M, Pires FR, Rumayor A, Carlos R, De Almeida OP, et al. Oral verruciform xanthoma: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 20 cases. J Cutan Pathol [Internet]. 2015; 42(7): 489-495. Disponible en: <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1111/cup.12500>
- Barrett AW, Boyapati RP, Bisase BS, Norris PM, Shelley MJ, Collyer J, et al. Verruciform xanthoma of the oral mucosa: a series of eight typical and three anomalous cases. Int J Surg Pathol [Internet]. 2019; 27(5): 492-498. Disponible en: <https://journals.sagepub.com/doi/10.1177/1066896919827374>
- Soares Marques YMF, De Andrade CR, Machado de Sousa SCO, Navarro CM. Oral verruciform xanthoma: a case report and literature review. Case Rep Pathol [Internet]. 2014; 2014: 641015. Disponible en: <https://www.hindawi.com/journals/crpa/2014/641015/>
- Arias VL, Rodríguez G. Xantoma verruciforme: características histopatológicas y patogénesis, análisis de casos de vulva y región perianal. Rev Asoc Colomb Dermatol Cir Dermatol [Internet]. 2010; 18(3): 160-165. Disponible en: <https://revista.asocolderma.org.co/index.php/asocolderma/article/view/327>
- Bhalerao S, Bhat P, Chhabra R, Tamgadge A. Verruciform xanthoma of buccal mucosa: a case report with review of literature. Contemp Clin Dent [Internet]. 2012; 3 (Supl. 2): S257-S259. Disponible en: https://journals.lww.com/cocd/fulltext/2012/03002/verruciform_xanthoma_of_buccal_mucosa_a_case.29.aspx
- García AS, Pagin O, Da Silva Santos PS, Oliveira DT. Verruciform xanthoma in the hard palate: a case report and literature review. J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg [Internet]. 2016; 42(6): 383-387. Disponible en: <https://synapse.koreamed.org/articles/1091947>
- Belknap AN, Islam MN, Bhattacharyya I, Cohen DM, Fitzpatrick SG. Oral verruciform xanthoma: a series

- of 212 cases and review of the literature. *Head Neck Pathol* [Internet]. 2020; 14(3): 742748. Disponible en: <https://link.springer.com/article/10.1007/s12105-019-01123-0>
13. Atarbashi-Moghadam S, Lotfi A, Kabiri F, Sijanivandi S. Verruciform xanthoma of the ventral surface of the tongue: a rare case report and literature review. *Iran J Otorhinolaryngol* [Internet]. 2021; 33(114): 55-59. Disponible en: https://ijorl.mums.ac.ir/article_17229.html
 14. Shibata M, Kodani I, Tanio K, Yamamoto T, Ueta E, Osaki T, et al. Clinico-immunohistochemical study of oral verruciform xanthomas. *Asian J Oral Maxillofac Cirug Surg* [Internet]. 2005; 17(2): 95-99. Disponible en: <https://www.sciencedirect.com/science/article/abs/pii/S0915699205800317>
 15. Monteiro MC de LJ, Furuse C, Cê LC, Santana AF, Araújo VC. Verruciform xanthoma: case report. *Rev Gaúcha Odontol* [Internet]. 2016; 64(1): 79-82. Disponible en: <https://www.scielo.br/j/rgo/a/7PzRfRt4wdHLYD7PqhsdYSH/?lang=en>
 16. Theofilou VI, Sklavounou A, Argyris PP, Chrysomali E. Oral verruciform xanthoma within lichen planus: a case report and literature review. *Case Rep Dent* [Internet]. 2018; 2018: 1615086. Disponible en: <https://www.hindawi.com/journals/crid/2018/1615086/>
 17. Aggarwal S, Aggarwal A, Gill S, Bakshi Y, Singh HP. Verruciform xanthoma of oral cavity - A case report. *J Clin Diagn Res* [Internet]. 2014; 8(7): FD11-FD12. Disponible en: https://jcdr.net/article_fulltext.asp?issn=0973-709x&year=2014&volume=8&issue=7&page=FD11&issn=0973-709x&id=4590
 18. Anbinder AL, De Souza Quirino MR, Haberbeck Brandão AA. Verruciform xanthoma and neurofibromatosis: a case report. *Br J Oral Maxillofac Surg* [Internet]. 2011; 49(4): e6-e7. Disponible en: [https://www.bjoms.com/article/S0266-4356\(10\)00204-4/fulltext](https://www.bjoms.com/article/S0266-4356(10)00204-4/fulltext)

Recibido 18-08-2022

Aceptado 03-03-2023