

CHEILITA CU PLASMOCITE

PLASMA CELL CHEILITIS

ALEXANDRU OANȚĂ*, **, MARIUS IRIMIE*, **, SMARANDA OANȚĂ*, NICOLETA VERESS*

Rezumat

Introducere: Cheilita cu plasmocite este o afecțiune inflamatorie cronică rară a buzelor caracterizată histologic prin prezența unui infiltrat plasmocitar abundent localizat în dermul superior. Este considerată omoloaga balanitei cu plasmocite Zoon. Clinic se prezintă ca plăci eritematoase circumscrie, erozive, localizate la nivelul buzelor.

Caz clinic: Prezentăm cazul unei femei în vârstă de 61 de ani care prezintă de 4 ani plăci dureroase, ușor edemațiate și erozive localizate la nivelul buzelor, rezistente la tratamentele topice cu nistatin, acid fucidinic, aciclovir, aplicate anterior. Examenul histologic a evidențiat prezența unui infiltrat format din numeroase plasmocite localizat în dermul superior. Examinările serologice, bacteriologice și micologice au fost negative. Pe baza examenului histopatologic s-a stabilit diagnosticul de cheilită cu plasmocite. S-a efectuat tratament cu cremă clobetasol propionat două aplicații pe zi timp de 30 de zile cu vindecarea leziunilor urmată de aplicații de două ori pe săptămână timp de două luni fără recidive la 12 luni de la terminarea tratamentului.

Discuții: Deși, de obicei, cheilita cu plasmocite este localizată doar la buze există și posibilitatea extinderii la mucoasa bucală, limbă, palat, epiglota și laringe. Cheilita cu plasmocite trebuie diferențiată de cheilita de contact alergică sau iritativă, cheilita candidozică și bacteriană, sifilis, cheilita actinică, cheilita granulomatoasă, cheilita factică, lichenul plan bucal, plasmocitomul extramedular, carcinomul spinocelular. Deși putem asista rareori la o involuție spontană a leziunilor, tratamentele precum topicele cu corticoizi, injecțiile intralezionale cu steroizi, topicele cu tacrolimus 0,1% sau ciclosporină pot conduce la vindecarea leziunilor.

Summary

Introduction: Plasma cell cheilitis is a rare chronic inflammatory disease of the lips characterized histologically by the presence of abundant plasma cell infiltrate in the upper dermis. It is considered homologous with plasma cell balanitis of Zoon. Clinically it presents as circumscribed, erosive, erythematous plaques located on the lips.

Clinical case: We present the case of a 61 years old woman who presented 4 years like pain, slightly edematous and erosive plaques located on the lips, resistant to previously topical treatment with nystatin, fucidinic acid, and acyclovir. Histological examination revealed the presence of an infiltrate consisting of numerous plasma cells located in the upper dermis. Based on histopathological examination the diagnosis of plasma cell cheilitis was made. Treatment was carried out with clobetasol propionate cream twice daily application for 30 days with healing of lesions, followed by twice a week applications for two-month with no relapses at 12 months after the end of treatment.

Discussion: Although usually plasma cell cheilitis is located only on the lips there is the possibility of extending to the oral mucosa, tongue, palate, epiglottis and larynx. Plasma cell cheilitis should be differentiated from allergic or irritant contact cheilitis, candidal and bacterial cheilitis, syphilis, actinic cheilitis, granulomatous cheilitis, factitial cheilitis, oral lichen planus, extramedullary plasmacytoma, squamous cell carcinoma. Although, lesions may rarely spontaneously regress, treatments such as topical or intralesional corticosteroids, topicals with 0.1% tacrolimus or cyclosporine may lead to healing of lesions.

* SC Dermamed Brașov.
SC Dermamed Brașov.

** Universitatea Transilvania Brașov.
Transilvania University of Brasov.

Concluzie: Cheilita cu plasmocite trebuie luată în considerare în diagnosticul diferențial al afecțiunilor inflamatorii ale buzelor, aspectul histologic tipic confirmând diagnosticul.

Cuvinte cheie: cheilita cu plasmocite.

Intrat în redacție: 15.08.2013

Acceptat: 18.08.2013

Conclusion: Plasma cell cheilitis should be considered in the differential diagnosis of inflammatory diseases of the lips, the typical histological appearance confirming the diagnosis.

Key words: plasma cell cheilitis.

Received: 15.08.2013

Accepted: 18.08.2013

Introducere

Cheilita cu plasmocite este o afecțiune inflamatorie rară a buzelor caracterizată histologic de un infiltrat format din plasmocite mature localizate în dermul superior. Cheilita cu plasmocite este considerată omoloaga balanitei cu plasmocite Zoon. Clinic se prezintă ca placă/plăci ușor erozive localizate pe buze. Deși de obicei afectează buzele, se poate extinde afectând și mucoasa bucală, limba, palatul, epiglota, laringele. Etiopatogenia cheilitei cu plasmocite rămâne necunoscută.

Caz clinic

Prezentăm cazul unei femei în vârstă de 61 de ani care prezenta de aproximativ 4 ani plăci dureroase, ușor edemațiate și erozive, acoperite de cruste, localizate la nivelul buzelor, rezistente la tratamentele topice cu nistatin, acid fucidinic, aciclovir aplicate anterior (fig. 1). Examenul histologic a evidențiat prezența unui infiltrat format din numeroase plasmocite în dermul superior. Examinările serologice pentru sifilis (TPHA), culturile și colorațiile speciale pentru fungi și bacterii au fost negative. Pe baza examenului histopatologic s-a stabilit diagnosticul de cheilită cu plasmocite. S-a efectuat tratament cu cremă clobetazol propionat două aplicații pe zi timp de 30 de zile cu vindecarea leziunilor (fig. 2) urmată de aplicații ale cremei de două ori pe săptămână timp de două luni fără recidive la 12 luni de la terminarea tratamentului.

Discuții

Cheilita cu plasmocite este o afecțiune inflamatorie idiopatică și benignă caracterizată prin prezența unui infiltrat plasmocitar dens dispus în bandă în dermul superior al buzelor. Este considerată omoloaga balanitei cu plas-

Introduction

Plasma cell cheilitis is a rare inflammatory disease of the lips characterized histologically by a mature plasma cell infiltrate in the upper dermis. Plasma cell cheilitis is considered homologous to Zoon's plasma cell balanitis. Clinically it presents in the form of a slightly erosive plaque(s) located on the lips. Although it usually affects the lips, it may also expand to the oral mucosa, tongue, palate, epiglottis, larynx. Etiopathogenesis of plasma cell cheilitis remains unknown.

Clinical case

We present the case of a 61 years old woman who had for approximately 4 years painful, slightly oedematous and erosive plaques covered by scabs located on the lips, resistant to previously topical treatment with nystatin, fusidic acid, and acyclovir (Fig. 1). The histological examination revealed the presence of an infiltrate consisting of numerous plasma cells in the upper dermis. Serology examinations for syphilis (TPHA), cultures and special stains for fungi and bacteria were negative. Based on the histopathological examination, the woman was diagnosed with plasma cell cheilitis. A treatment with clobetasol propionate cream was applied twice daily for 30 days resulting in lesion healing (Fig. 2), followed by twice a week cream applications for two-month with no relapses at 12 months after the end of treatment.

Discussions

Plasma cell cheilitis is an idiopathic and benign inflammatory disease characterized by the presence of a dense plasma cell infiltrate with band distribution in the upper dermis of the lips. It is considered homologous to Zoon's plasma



Fig. 1. Cheilita cu plasmocite – aspect clinic înainte de tratament

Fig. 1. Plasma cell cheilitis - Clinical appearance before treatment



Fig. 2. Cheilita cu plasmocite – aspect clinic după tratament

Fig. 2. Plasma cell cheilitis - Clinical appearance after treatment

plasmocite Zoon¹. Pe lângă buze pot fi afectate și alte organe precum mucoasa bucală, palatul, gingia, limba, epiglota și laringele, vulva^{2, 3, 4}. Schuermann⁵ și Luders⁶ în 1960 respectiv în 1972 regroupează diferitele variante anatomice sub denumirea de *plasmocytosis circumorificialis* și *plasmocytosis mucosae*. Inflamația plasmocitară a buzelor, gingiilor și limbii au fost descrise cu sinonime precum gingivostomatita atipică, gingivostomatita idiopatică sau gingivostomatita alergică primară⁷. White și colab.³ propun termenul de *plasma-cell orificial mucositis* care să cuprindă varietatea denumirilor folosite pentru diferitele localizări anatomice ale afecțiunii.

Cheilita cu plasmocite se prezintă clinic sub formă de plăci eritematoase strălucitoare, netede sau reliefate, bine circumscrise, pe alocuri cu eroziuni dureroase și sângerânde, localizate pe ambele buze, mai frecvent pe buza inferioară. Este o afecțiune întâlnită mai frecvent la femei și persoanele în vârstă.

În etiopatogenia bolii sunt incriminați diverși stimuli precum traumatismele mecanice, parodontoză, afectarea solară, sensibilizarea de contact dar și factori genetici, hormonal sau autoimuni^{2, 7, 8}. De asemenea s-a discutat și rolul jucat de o serie de factori precipitanți precum utilizarea gumei de mestecat sau a produselor de îngrijire dentară cu mentă^{7, 9}. În cazul pacientei noastre nu a fost identificat niciunul dintre acești factori incriminați în apariția cheilitei cu plasmocite.

cell balanitis¹. Besides lips, it may also affect other organs such as oral mucosa, palate, gums, tongue, epiglottis and larynx, vulva^{2, 3, 4}. Schuermann⁵ and Luders⁶ in 1960 and 1972 respectively regroup the different anatomic variants as *plasmocytosis circumorificialis* and *plasmocytosis mucosae*. Plasma cell inflammations of the lips, gums and tongue were described using synonyms such as atypical gingivostomatitis, idiopathic gingivostomatitis or primary allergic gingivostomatitis⁷. White et al.³ propose the term *plasma-cell orificial mucositis* to cover the variety of names used for the different anatomical locations of the disease.

The clinical presentation of plasma cell cheilitis is in the form of shiny, smooth or raised erythematous plaques, well circumscribed, sometimes with painful erosions and bleeding, located on both lips, most frequently on the lower lip. It is a condition more common in women and the elderly.

The etiopathogenesis of the disease incriminates various stimuli such as mechanical trauma, periodontitis, sun damage, contact sensitization and also genetic, hormonal or autoimmune factors.^{2, 7, 8} There has also been discussed the role played by a number of factors such as the use of chewing gum or dental care products with mint.^{7, 9} In the case of our patient none of these factors incriminated in the development of plasma cheilitis was identified.

Cheilita cu plasmocite trebuie diferențiată de o serie de afecțiuni precum cheilita de contact alergică sau iritantă, cheilita candidozică sau bacteriană, sifilisul, cheilita granulomatoasă sindromul Melkerson-Rosenthal, sarcoidoza, plasmocitomul, cheilita factică, angioedemul, lichenul plan și carcinomul spinocelular^{1, 4}. În cazul nostru anamneza atentă asupra contactului anterior apariției cheilitei cu o substanță și lipsa spongiozei și eozinofiliei exclud posibilitatea unei cheilite de contact. Cheilita candidozică și bacteriană au fost excluse prin efectuarea de culturi și colorații speciale, iar sifilisul prin serologia negativă a anticorpilor față de *Treponema pallidum* (TPHA). Examenul histopatologic a exclus cheilita actinică prin lipsa keratinocitelor atipice și cheilita granulomatoasă prin absența infiltratului granulomatos. De lichenul plan bucal cazul nostru se diferențiază prin lipsa aspectului histopatologic caracteristic acestuia și anume absența infiltratului limfocitar din dermul superior, a aspectului de dinți de fierăstrău al creștelor interpapilare și a corpiilor citoizi. Urmărirea și anamneza nu au evidențiat tulburări de personalitate ale pacientei excluzând astfel o cheilită factică.

Evolutiv cheilita cu plasmocite este o afecțiune durabilă, cu rare remiteri spontane și fără potențial de malignizare¹⁰.

În privința tratamentului se impune în primul rând încercarea de identificare și eliminare a posibilelor stimuli cauzatori. Corticosteroidii potenți aplicați sub formă topică sau ca injecții intralezionale reduc infiltratul plasmocitar putând conduce la vindecarea leziunilor. Rezultatele diferite obținute în cursul tratamentului topic cu corticoizi au fost în funcție de grosimea epidermului buzelor: atrofie, acantoză ușoară sau moderată^{3, 11}. Injecțiile intralezionale cu corticosteroizi au efect crescut prin trecerea mai ușoară a corticosteroidului de bariera epidermică¹². Kaur și colab.² au tratat cu succes un pacient cu corticoid topic asociat cu injecții cu triamcinolon acetamid intralezional 10 mg/ml administrate la un interval de 2 săptămâni trei ședințe. Yang și colab.¹² au tratat cu injecții cu triamcinolon acetamid 4-5 mg/ml administrate la un interval de 2 săptămâni, în total 3 ședințe obținând vindecarea. Alte tratamente folosite în cheilita cu plasmocite sunt

Plasma cell cheilitis needs to be distinguished from a number of conditions such as allergic or irritant contact cheilitis, cheilitis candidiasis or bacterial cheilitis, syphilis, granulomatous cheilitis, Melkerson-Rosenthal syndrome, sarcoidosis, plasmacytoma, factice cheilitis, angioedema, lichen planus and squamous cell carcinoma.^{1, 4} In our case, the careful anamnesis of a prior contact with a substance and the absence of sponginess and eosinophilia exclude the possibility of contact cheilitis. Cheilitis candidiasis and bacterial cheilitis were excluded by performing cultures and special stains, and syphilis through the negative serology of antibodies to *Treponema pallidum* (TPHA). Histopathology excluded actinic cheilitis by the absence of atypical keratinocytes and granulomatous cheilitis by the absence of a granulomatous infiltrate. Our case distinguishes from the oral lichen planus by the absence of the histopathologic appearance characteristic to the above, namely the absence of the lymphocytic infiltrate in the upper dermis, of the appearance of saw teeth of interpapillary ridges and cytooid bodies. The follow-up and anamnesis revealed no personality disorders in the patient, thus excluding a factice cheilitis.

In terms of its evolution, plasma cell cheilitis is a long-lasting condition, with rare spontaneous remission and without malignant potential¹⁰.

Regarding its treatment, it is necessary first to attempt to identify and eliminate any potential causative stimuli. Potent corticosteroids applied in topical form or as intralesional injections reduce plasma cell infiltrate and may lead to lesion healing. The different results obtained in the topical treatment with corticoids were based on the thickness of the lips epidermis: atrophy, mild or moderate acanthosis.^{3, 11} Intralesional corticosteroid injections have an increased effect due to the easier passage of corticosteroids beyond the epidermal barrier.¹² Kaur et al.² successfully treated a patient with topical corticoid associated with intralesional injection of triamcinolone acetamide 10 mg/ml administered at an interval of two weeks in three sessions. Yang et al.¹² applied a treatment with injections of triamcinolone acetamide 4-5 mg/ml at an interval of 2 weeks, in a total of 3 sessions, achieving total healing. Other treatments used in plasma cell cheilitis are surgical excision, radiation therapy,

excizia chirurgicală, radioterapia, electrocauterizarea, crioterapia, topicele cu acid fucidinic, griseofulvină per os^{1, 3, 12} sau ciclosporina în aplicații topice¹³, dar de multe ori tratamentul folosit se dovedește inefficient. În cheilita, balanita și vulvita cu plasmocite au fost utilizate cu succes topice cu inhibitori ai calcineurinei (tacrolimus 0,1%)^{14, 15, 16, 17}.

În concluzie, cheilita cu plasmocite este o afecțiune rară cu evoluție benignă care trebuie luată în considerare în diagnosticul diferențial al cheilitelor inflamatorii, caracteristica cheilitei cu plasmocite fiind prezența infiltratului plasmocitar abundent localizat în dermul superior.

electrocautery, cryotherapy, topical therapies with fusidic acid, griseofulvin per os^{1, 3, 12} or cyclosporine in topical applications, but the treatment used often proves ineffective. In plasma cell cheilitis, balanitis and vulvitis there have been successfully used topical therapies with calcineurin inhibitors (tacrolimus 0.1%).^{13, 14, 15, 16}

In conclusion, plasma cell cheilitis is a rare condition with benign evolution which needs to be considered in the differential diagnosis of inflammatory cheilitis, a characteristic of plasma cell cheilitis being the presence of an abundant plasma cell infiltrate located in the upper dermis.

Bibliografie/Bibliography

1. Rocha N, Mota F, Horta M, Lima O, Massa A, Sanches M. Plasma cell cheilitis. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2004 Jan;18(1):96-8.
2. Kaur C, Thami GP, Sarkar R, Kanwar AJ. Plasma cell mucositis. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2001 Nov;15(6):566-7.
3. White JW Jr, Olson KD, Banks PM. Plasma cell orificial mucositis: report of a case and review of the literature. *Arch Dermatol* 1986; 122: 1321-4.
4. Tseng JT, Cheng CJ, Lee WR, Wang KH. Plasma-cell cheilitis: successful treatment with intralesional injections of corticosteroids. *Clin Exp Dermatol.* 2009 Mar;34(2):174-7.
5. Schuermann H. Plasmocytosis circumorificialis. *Dtsch Zahnärztl Z* 1960;15: 601-607.
6. Lüders G. Plasmacytosis mucosae - an oft-mistaken new syndrome. An investigation into the clinical symptoms, histomorphology, immunopathology and pathogenesis of „chronic benign circumscribed haemosiderotic plasmocellular inflammation of the mucous membrane“. *Munch Med Wochenschr.* 1972 Jan 7;114(1):8-12.
7. Lubow RM, Cooley RL, Hartman KS, McDaniel RK. Plasma cell gingivitis: Report of a case. *J Periodontol* 1984;55: 235-241.
8. Hanami Y, Motoki Y, Yamamoto T. Successful treatment of plasma cell cheilitis with topical tacrolimus: report of two cases. *Dermatol Online J.* 2011 Feb 15;17(2):6.
9. Perry HO. Idiopathic gingivostomatitis. *Dermatol Clin* 1987;5:719-722.
10. Ferreiro JA, Egorshin EV, Olsen KD et al. Mucous membrane plasmacytosis of the upper aerodigestive tract. *Am J Surg Pathol* 1994;18:1048-53.
11. Jones SK, Kennedy CT. Response of plasma cell orificial mucositis to topically applied steroids. *Arch Dermatol* 1988;124: 1871-2.
12. Yang JH, Lee UH, Jang SJ, Choi JC. Plasma cell cheilitis treated with intralesional injection of corticosteroids. *J Dermatol* 2005; 32: 987-90.
13. Heinemann C, Fischer T, Barta U, Michaelides A, Elsner P. Plasma cell mucositis with oral and genital involvement - successful treatment with topical cyclosporin. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2006 Jul;20(6):739-40.
14. Moreno-Arias GA, Camps-Fresneda A, et al. Plasma cell balanitis treated with tacrolimus 0.1%. *Br J Dermatol.* 2005Dec;153(6):1204-6.
15. Hague J, Ilchyshyn A. Successful treatment of Zoon's balanitis with topical tacrolimus. *Int J Dermatol.* 2006 Oct;45(10):1251-2.
16. Roe E, Dalmau J, et al. Plasma cell balanitis of Zoon treated with topical tacrolimus 0.1%: report of three cases. *J Eur Acad Dermatol Venereol.* 2007 Feb;21(2):284-5.
17. Virgili A, Mantovani L, et al. Tacrolimus 0.1% ointment: is it really effective in plasma cell vulvitis? Report of four cases. *Dermatology.* 2008;216(3):243-6.

Conflict de interes
NEDECLARATE

Conflict of interest
NONE DECLARED

Adresa de corespondență: S.C. DERMAMED Brașov, Strada Zizinului 40
marius_irimie2002@yahoo.com

Correspondance address: S.C. DERMAMED Brașov 40, Zizinului Street
marius_irimie2002@yahoo.com