



Лимфангиома вульвы у молодой женщины, диагностированная ранее как аногенитальные бородавки

Ю.Н. Грекова✉, Н.В. Зильберберг, Н.П. Торопова

ГБУ СО «Уральский научно-исследовательский институт дерматовенерологии и иммунопатологии», Екатеринбург, Россия
✉kjn@mail.ru

Аннотация

Лимфангиома вульвы является редко встречающейся доброкачественной опухолью. Клинические проявления в виде папилломатозных разрастаний затрудняют дифференциальную диагностику и часто расцениваются как герпесвирусная или папилломавирусная инфекция. Мы представляем клинический случай лимфангиомы вульвы у пациентки 19 лет с анамнезом заболевания в течение 8 лет, ранее диагностированную как папилломавирусная инфекция, по поводу которой неоднократно проводилась криодеструкция без видимого эффекта. Клинически заболевание проявлялось множественными веррукозными разрастаниями на больших половых губах. При патоморфологическом исследовании определялся гиперплазированный эпидермис с гиперкератозом, полости, выстланные эндотелием и заполненные эозинофильной белковой жидкостью. До настоящего времени не существует единого мнения об оптимальной терапии лимфангиомы вульвы. Использование деструктивных методов не всегда эффективно и частота рецидивов остается достаточной высокой.

Ключевые слова: лимфангиома, доброкачественные новообразования вульвы, папилломавирусная инфекция, аногенитальные бородавки.

Для цитирования: Грекова Ю.Н., Зильберберг Н.В., Торопова Н.П. Лимфангиома вульвы у молодой женщины, диагностированная ранее как аногенитальные бородавки. Клинический разбор в общей медицине. 2023; 4 (1): 61–63. DOI: 10.47407/kr2023.4.1.00192

Lymphangioma of the vulva in a young woman, diagnosed previously as anogenital warts

Yulia N. Grekova✉, Natalya V. Zilberberg, Nina P. Toropova

Ural Scientific Research Institute of Dermatology and Immunopathology, Ekaterinburg, Russia
✉kjn@mail.ru

Abstract

Lymphangioma of the vulva is a rare benign tumor. Clinical manifestations in the form of papillomatous growths make differential diagnosis difficult and are often regarded as a herpes virus or papillomavirus infection. We present a clinical case of vulvar lymphangioma in a 19-year-old patient with an 8-year history of the disease, previously diagnosed as papillomavirus infection, for which cryodestruction was repeatedly performed without any visible effect. Clinically, the disease was manifested by multiple verrucous growths on the labia majora. A skin biopsy showed hyperplastic epidermis with hyperkeratosis, cavities lined with endothelium and filled with eosinophilic protein fluid. To date, there is no consensus on the optimal therapy for vulvar lymphangioma. The use of destructive methods is not always effective and the recurrence rate remains high enough.

Keywords: lymphangioma, benign neoplasms of the vulva, papillomavirus infection, anogenital warts.

For citation: Grekova Y.N., Zilberberg N.V., Toropova N.P. Lymphangioma of the vulva in a young woman, diagnosed previously as anogenital warts. Clinical review for general practice. 2023; 4 (1): 61–63. DOI: 10.47407/kr2023.4.1.00192

Введение

Лимфангиома, образованная расширенными лимфатическими сосудами, состоит из соединительнотканной основы и эндотелиальных клеток и является доброкачественной опухолью, формирующейся в результате врожденного порока развития лимфатической системы, чаще всего локализуется на туловище, конечностях и ротовой полости и в ряде случаев сопровождается лимфедемой [1]. Лимфангиома вульвы встречается довольно редко, и описание отдельных клинических случаев ограничивается не более 100 публикаций [2–5]. Клинически лимфангиома проявляется наличием расположенных диффузно или сгруппированных милиарных псевдовезикул с чет-

кими границами и прозрачным содержимым [1]. Дифференциальную диагностику проводят с заболеваниями аногенитальной области, характеризующимися наличием везикулезных и веррукозных элементов. Наиболее часто таким пациентам первично ставится диагноз папилломавирусной или герпесвирусной инфекции [6–10].

Неэффективность специфической противовирусной и деструктивной терапии и патоморфологическое исследование позволяют установить правильный диагноз и назначить своевременную адекватную терапию.

Мы представляем клинический случай лимфангиомы вульвы у пациентки 19 лет, первично диагностированной как аногенитальные бородавки.

Рис. 1. Верукозные образования на коже больших половых губ.
Fig. 1. Verrucous lesions on the skin of the labia majora.



Пациентка Я., 19 лет, обратилась в консультативно-поликлиническое отделение ГБУ СО «Уральский научно-исследовательский институт дерматовенерологии и иммунопатологии» с жалобами на высыпания на больших половых губах, сопровождающиеся незначительным периодически возникающим дискомфортом. Высыпания впервые заметила в 11-летнем возрасте. При обращении в специализированное медицинское учреждение был установлен диагноз: аногенитальные бородавки. За этот период пациентке неоднократно проводилась криодеструкция без видимого эффекта.

Из акушерско-гинекологического анамнеза: менструации с 13 лет, регулярные, безболезненные, половой жизнью не живет. Соматических заболеваний нет. Наследственный и аллергоанамнез не отягощены.

Локальный статус: кожный процесс носит локализованный характер, располагается на коже больших половых губ, более выражен слева и представлен верукозными образованиями на плотном основании, морфологически напоминающими везикулы с желтоватым содержимым, незначительно болезненными при пальпации (рис. 1).

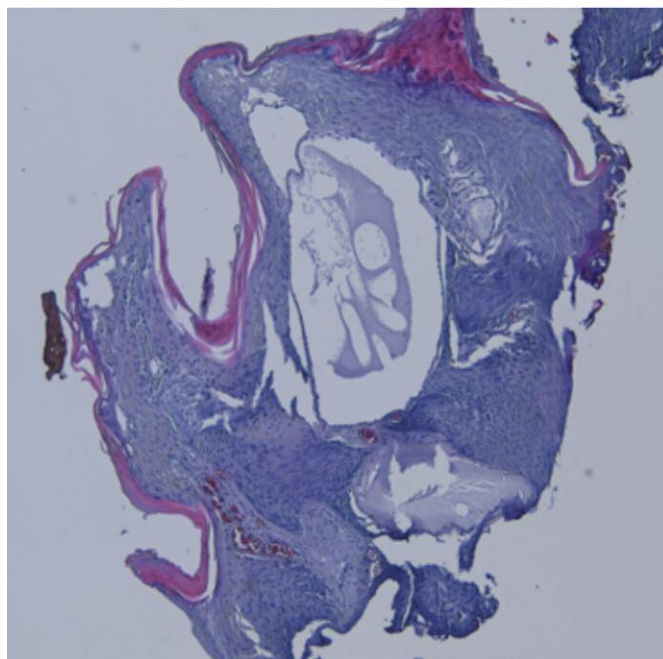
Паховые лимфоузлы не увеличены, безболезненные, подвижные, не спаяны с кожей и между собой. Бартолиневы железы и их протоки не определяются. Уретра мягкая, безболезненная. Парауретральные железы не определяются. Девственная плева сохранена. Живот мягкий, безболезненный во всех отделах.

Результаты обследования: *C. trachomatis*, *M. hominis*, *U. urealyticum*, *M. genitalium*, цитомегаловирус, вирус простого герпеса, папилломавирусы ПЦР-методом не обнаружены, иммуноферментный анализ на сифилис, иммуноглобулины М и G отрицательный, антитела к ВИЧ, гепатиту С, HBs Ag не обнаружены.

Патоморфологическое исследование материала, представленного фрагментом кожи с кистозно-расши-

Рис. 2. Гиперплазированный эпидермис с гиперкератозом и полостями, выстланными эндотелием и заполненными эозинофильной белковой жидкостью.

Fig. 2. Hyperplastic epidermis with hyperkeratosis and cavities lined with endothelium and filled with eosinophil protein fluid.



ренными лимфатическими сосудами, выстланными преимущественно эндотелиальной тканью, содержащими лимфатическую жидкость и эритроциты: в эпидермисе признаки акантоза, папилломатоза; под гиперплазированным эпидермисом с гиперкератозом определяются полости, выстланные эндотелием и заполненные эозинофильной белковой жидкостью, в части просветов определяются эритроциты (рис. 2). Заключение: кистозная лимфангиома.

С диагнозом «кистозная лимфангиома вульвы» пациентка направлена для проведения лазерной CO_2 -вапоризации.

Обсуждение

Первичная лимфангиома формируется вследствие локального порока развития лимфатических сосудов и проявляется в раннем возрасте [11]. Вторичная лимфангиома вульвы является следствием длительной обструкции лимфатических сосудов малого таза после хирургического вмешательства, лучевой терапии, инфекционных заболеваний (туберкулез и др.), болезни Крона, врожденной диспластической ангиопатии и лимфедемы [12–14]. Наличие характерных папилломатозных разрастаний диктует необходимость проведения дифференциальной диагностики с герпесвирусной и папилломавирусной инфекцией. «Золотым стандартом» диагностики является патоморфологическое исследование. До настоящего времени отсутствует единое мнение о тактике ведения пациентов с лимфангиомой вульвы. В исследованиях показана эффективность использования лазерной CO_2 -вапоризации, криотерапии и лучевой терапии [4,

15, 16]. Однако частота рецидивов до настоящего времени остается высокой и достигает 23,1% в период наблюдения от 6 до 81 мес [17].

Выводы

Проведенное патоморфологическое исследование позволило установить правильный диагноз и рекомендовать адекватную и эффективную терапию, которой в настоящее время считается лазерная CO₂-вапоризация очагов поражения, позволяющая добиться максимального косметического эффекта и в большинстве случаев предотвратить развитие рецидива заболевания. Дифференциальная диагностика лимфангиомы должна проводиться с заболеваниями аногенитальной области, сопровождающимися веррукозными и везикулезными высыпаниями.

Литература / References

1. Verma SB. Lymphagiectasis of the skin: victims of confusing nomenclature. *Clin Exp Dermatol* 2009; 34: 566–9.
2. Кузнецова Ю.Н., Зильберберг Н.В. Лимфангиома вульвы. *Акушерство и гинекология*. 2015; 7: 106–7. [Kuznetsova Yu.N., Zilberberg N.V. Limfangioma vul'vy. *Akusherstvo i ginekologiya*. 2015; 7: 106–7 (in Russian).]
3. Chang MB, Newman CC, Davis MD, Lehman JS. Acquired lymphangiectasia (lymfangioma circumscriptum) of the vulva: Clinicopathologic study of 11 patients from a single institution and 67 from the literature. *Int J Dermal* 2016; 55: 482–7.
4. Sinha A, Phucan JP, Jalan S, Pal S. Lymphangioma circumscriptum of the vulva: report of a rare case. *J Midlife Health* 2015; 6: 91–3.
5. Kokcu A, Sari S, Kefeli M. Primary vulvar lymphangioma circumscriptum: a case report and review of literature. *J Low Genie Tract Dis* 2015; 19 (1): 1–5.
6. Callander JA, Davies BM, Hill G. Acquired lymphangioma circumscriptum of the vulva secondary to severe herpes simplex infection. *Sex Transm Infect* 2020; 96: 233–34.
7. Gude G, Gupta P, Sharma RK, Rajwanshi A. Primary lymphangioma circumscriptum of the vulva presenting as warty plaques. *Australas J Dermatol* 2019; 60 (4): 305–7.
8. Sah SP, Yadav R, Rani S. Lymphangioma circumscriptum of the vulva mimicking genital wart: a case report and review of literature. *J Obstet Gynaecol Res* 2001; 27 (5): 293–6.
9. Zhu JW, Lu ZF, Zheng M. Acquired progressive lymphangioma in the inguinal area mimicking giant condyloma acuminatum. *Cutis* 2014; 93 (6): 316–9.
10. Simeonovski V, Kostovski M, Gjoric I et al. Acquired lymphangiectasia: a rare mimic of genital warts. *Dermatology Online J* 2020; 26 (12): 19.
11. North J, White K, White C, Solomon A. Acquired, verrucous, gluteal lymphangioma in the setting of Crohn's disease. *J Am Acad Dermatol* 2011; 64 (5): 90–1.
12. Braun-Falco O, Plewig G, Wolff HH, Burgdorf WHC. *Dermatology*. 2nd ed. Berlin; Germany: Springer; 2000. P. 1553–60.
13. Mu XC, Tran TAN, Dupree M, Carlson JA. Acquired vulvar lymphangioma mimicking genital warts. A case report and review of the literature. *J Cutan Pathol* 1999; 26 (3): 150–4.
14. Papalas JA, Robboy SJ, Burchette JL et al. Acquired vulvar lymphangioma circumscriptum: a comparison of 12 cases with Crohn's associated lesions or radiation therapy induced tumors. *J Cutan Pathol* 2010; 37 (9): 958–65.
15. Vignes S, Arrault M, Trévidic P. Surgical resection of vulva lymphoedema circumscriptum. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2010; 63: 1883–5.
16. Sasaki R, Negishi K, Akita Y et al. Successful treatment of congenital lymphangioma circumscriptum of the vulva with CO₂ and long-pulsed Nd:YAG lasers. *Case Rep Dermal* 2014; 6: 1–4.
17. Valente K, Montgomery K, Schultenover S, Desouki MM. Acquired vulvar lymphangioma circumscriptum after cervical cancer treatment: Case report. *Gynecol Oncol Rep* 2016; 16: 31–3.

ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ / INFORMATION ABOUT THE AUTHORS

Грекова Юлия Николаевна – д-р мед. наук, вед. науч. сотр. отд. сифилидологии и инфекций, передаваемых половым путем, ГБУ СО «Уральский научно-исследовательский институт дерматовенерологии и иммунопатологии». E-mail: kjn@mail.ru; ORCID: 0000-0001-7345-3068

Yulia N. Grekova – D. Sci. (Med.), Ural Research Institute of Dermatovenereology and Immunopathology. E-mail: kjn@mail.ru; ORCID: 0000-0001-7345-3068

Зильберберг Наталья Владимировна – д-р мед. наук, проф., зам. дир. по научной работе, ГБУ СО «Уральский научно-исследовательский институт дерматовенерологии и иммунопатологии». E-mail: zilberberg@mail.ru; ORCID: 0000-0002-7407-7575
Natalya V. Zilberberg – D. Sci. (Med.), Prof., Ural Research Institute of Dermatovenereology and Immunopathology. E-mail: zilberberg@mail.ru; ORCID: 0000-0002-7407-7575

Торопова Нина Петровна – д-р мед. наук, проф., вед. науч. сотр. научно-образовательного отд., ГБУ СО «Уральский научно-исследовательский институт дерматовенерологии и иммунопатологии»
Nina P. Toropova – D. Sci. (Med.), Prof., Ural Research Institute of Dermatovenereology and Immunopathology

Поступила в редакцию / Received: 07.12.2022

Поступила после рецензирования / Revised: 20.01.2022

Принята к публикации / Accepted: 12.01.2023