

## Anjina Bülloza Hemorajikalı İki Olgu

Mehmet Karakaş\*, Ayşe Akman\*, Murat Durdu\*, Aydın Yücel\*, Mete Baba\*\*  
Seydo Homan\*, Y. Gül Denli\*, Hamdi R. Memişoğlu\*

\* Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi Dermatoloji Anabilim Dalı

\*\* Başkent Üniversitesi Tıp Fakültesi Adana Hastanesi Dermatoloji Anabilim Dalı

## Özet

Anjina bülloza hemorajika (ABH) oral mukozada gelişen hemorajik büllerle karakterize selim, akut bir tablodur. Lezyonlar genellikle tekrarlayıcı karakterde olup skar bırakmadan iyileşirler. ABH genellikle orta yaş veya yaşlı hastalarda görülen bir hastalıktır. Oluşumunda birçok faktör sorumlu tutulmaktadır, ancak travmanın temel provake edici faktör olduğu ve uzun süre inhaler steroid kullanımının hastalığı olumsuz yönde etkilediği düşünülmektedir. Biz kronik obstrüktif akciğer hastalığına sahip rekürren oral hemorajik bülleri olan iki hasta sunuyoruz: Hipertansiyonu, aterosklerotik kalp hastalığı ve hiperglisemisi olan 78 yaşında bir erkek hasta ve altı yıldır inhaler steroid kullanan 40 yaşında erkek hasta. Selim olan bu hastalık hava yolunda akut obstrüksiyonla sonuçlanabilmektedir. Bu nedenle dermatologlar ABH'dan haberdar olmalıdır.

**Anahtar Kelimeler:** Oral, hemorajik, bül

Karakaş M, Akman A, Durdu M, Yücel A, Baba M, Homan S, Denli YG, Memişoğlu HR. Anjina bülloza hemorajikalı iki olgu. TÜRKDERM 2004; 38: 75-77

## Summary

ABH is a benign phenomenon that is characterized by acute blood-filled blisters of the oral mucosa. The lesions are usually recurrent, that heal without scarring. ABH is predominantly a localized disorder of middle-aged or elderly patients. The cause may be a multifactorial phenomena, but trauma seems to be the major provoking factor and long term use of steroid inhalers has also been implicated in the disease. We report two patients with recurrent oral blood blisters, who have chronic obstructive airway disease. A 78-year-old male patient has also hypertension, atherosclerotic heart disease and hyperglycemia. A 40-year-old male other patient has used steroid inhalers for 6 years. Although this is a benign condition, it may result in acute airway obstruction. Therefore dermatologists should be aware of ABH.

**Key Words:** Oral, haemorrhagic, blister

Karakaş M, Akman A, Durdu M, Yücel A, Baba M, Homan S, Denli YG, Memişoğlu HR. Angina bullosa haemorrhagica-a report of two cases. TÜRKDERM 2004; 38: 75-77

ABH oral mukozada gelişen hemorajik büllerle karakterize selim, akut bir tablodur. Lezyonlar genellikle tekrarlayıcı karakterde olup skar bırakmadan iyileşirler<sup>1</sup>. Selim bir hastalık olmasına rağmen hava yolunda akut obstrüksiyona yol açabilmesi ve oral mukozadaki çok sayıda lezyonu taklit edebilmesi nedeniyle önemli olduğunu düşündüğümüz ABH'lı iki olgunun klinik özellikleri sunuldu.

## Olgular

Olgu 1. 78 yaşında erkek, ağzının içinde 3 aydır tekrarlayan ağrısız hemorajik büller

şikayetiyle kliniğimize başvurdu. Lezyonlar sıcak içeceklerden sonra ağız içinde aniden başlayıp birkaç saat içinde rüptüre olup kendiliğinden iyileşiyormuş. Özgeçmişinde kronik obstrüktif akciğer hastalığı, hipertansiyon ve aterosklerotik kalp hastalığı olduğu öğrenildi. Bu hastalıkları için dokuzazosin, dipiridamol, terbutalin ve ipratropium bromide ve salbutamol inhaler kullanmaktaydı. Dermatolojik muayenede sert ve yumuşak damağın birleşme yerinde 1x3 cm boyutunda gevşek görünümlü hemorajik bül saptandı (Şekil 1). Nikolsky negatif idi. Laboratuvar incelemesinde hiperglisemi

**Alındığı Tarih:** 04.09.2002 **Kabul Tarihi:** 24.12.2002

**Yazışma Adresi:** Doç.Dr. Mehmet Karakaş, Çukurova Üniversitesi Tıp Fakültesi Dermatoloji AD, 01330 Balcalı/Adana

Tel: (322) 338 64 26, Fax: (322) 338 66 56, E-mail: cudermadana@hotmail.com

dışında bir anormallik saptanmadı. Hastaya gentian-violet %0.5 solüsyon ile atuşman önerildi, sert ve sıcak yiyecekler yasaklandı ve olası ani hava yolu tıkanmasına karşı uyarıldı. Mevcut lezyon 7 gün içerisinde skarsız iyileşti.

Kırk yaşında erkek 2. olgu ise 1 yıldır dilin lateralinde tekrarlayıcı karakterde hemorajik bülle nedeniyle kliniğimize başvurdu. Lezyonların sert gıdalar yenildikten sonra geliştiğini ifade eden hasta 6 yıldır astım nedeniyle inhaler steroid kullanıyordu. Bize başvurduğu sırada butenosid ve salbutamol inhaler kullanmaktaydı. Dermatolojik muayenesinde: dilin sol lateralinde ve altında hemorajik değişik büyüklüklerde gergin görünümlü 4 adet bül saptandı (Şekil 2). Nikolsky fenomeni negatif olan hastanın laboratuvar muayenesinde patoloji saptanmadı. Hastaya anti-septik solüsyonlarla gargara tedavisi verildi. Lezyonlar skar bırakmadan 10 gün içerisinde iyileşti. Nüksleri önlemek amacıyla steroid inhaler kullanımından hemen sonra gargara yapması önerildi ve olası obstrüksiyona karşı uyarıldı.

### Tartışma

ABH, ilk olarak 1933 yılında dikkati çekmiş ve "travmatik oral hemophylctenosis" veya "rekürren oral hemophylctenosis" olarak isimlendirilmiştir. Badham ise 1967'de hastalarında oral ve orofarengial mukozada akut gelişimli hemorajik bülleleri gözlemlediğinde bu tabloyu ABH olarak tanımlanmıştır<sup>1</sup>. Yine Badham, büllelerin sadece oral mukozada değil anterior faucial pilli, epiglottis, arytenoids, özofagusun farangeal duvarı gibi oral mukozaya komşu bölgeler-

de de görülebileceğini belirtmiştir<sup>2,3</sup>. Kirtschig ve Happle ise büllelerin ağrısız olması nedeni ile bu tablonun ABH diye isimlendirilmesinin doğru olmadığını ifade etmişlerdir<sup>4</sup>.

Her iki cinsiyeti eşit oranda etkileyen ABH, genellikle orta ve ileri yaşlarda görülmektedir<sup>2,3</sup>. ABH'a kan diskrazileri ve immünopatojenik hastalıklar eşlik etmemektedir<sup>1,3,5</sup>. Oral mukozanın herhangi bir yerinde gelişebilen gevşek veya gergin, ağrısız hemorajik bülleler genellikle rekürren karakterde olup birkaç günde skar bırakmadan iyileşmektedir.

Bu tablonun etyopatogenezi henüz tam olarak anlaşılamamıştır. ABH'li hastalarda genellikle glukoz metabolizma bozukluğu<sup>5</sup>, inhaler steroid kullanımı<sup>6,8</sup> öyküsü alınmakta ve lezyonlar endoskopi, entübasyon, ekstübasyon, dental işlemler gibi travmatik girişimleri takip etmektedir<sup>9-10</sup>. Hiperglisemi ve steroid kullanımına sekonder kollajen yapımının azalması ve epitelial atrofisinin gelişmesini takiben çeşitli travmaların tetikleyici faktör olduğu düşünülmektedir<sup>1</sup>. Birinci olgumuzda kronik obstrüktif akciğer hastalığı, hipertansiyon, aterosklerotik kalp hastalığı ve hiperglisemi vardı, ikinci olgu ise astım bronşiale nedeniyle 6 yıldır inhaler steroid kullanmaktaydı. Olgularımızda inhaler steroidin yanısıra diğer hastalıklarında stroma ve kapiller damarlarda anormalliklere neden olarak sert ve sıcak yiyecek ve içecekler gibi minör travma sonrasında frajil mukozada hemorajik büllelerin oluştuğunu düşünmekteyiz.

Histolojik olarak intakt subepitelyal bül ya da lamina propriyadan subepitelyal ayrışma, eritrosit ekstra-



Şekil 1: Oral mukozada sert damakta hemorajik bül.



Şekil 2: Dilin sol lateralinde iki adet hemorajik bül.

zasyonu görülmektedir. Bizim olgularımız lezyonların kısa sürede rüptüre olup iyileşmesi nedeniyle biyopsiyi kabul etmedikleri için histolojik değerlendirilme yapılamadı.

Ayırıcı tanıda pemfigus vulgaris, büllöz pemfigoid, epidermolizis bülloza, lineer IgA hastalığı, dermatitis herpetiformis, amiloidozis düşünülmelidir<sup>1,3,6</sup>. Bu hastalıklarda lezyonlar kroniktir ve sistemik bulgular mevcuttur. Olgularımızda ise lezyonlar 1 hafta içinde skar bırakmadan iyileşmekteydi, başka cilt bulgusu ve bilinen hastalıkları dışında klinik ve laboratuvar olarak amiloidozis düşünülmedi. Biyopsi yapılamadı ancak alınan serum örneğinde çalışılan indirekt immüno floresan incelemede herhangi bir immunoreaktan depolanması saptanmadı. Yine tam kan sayımı, kanama, pıhtılaşma zamanı normal olan olgularımızda klinik ve laboratuvar olarak trombositopenili hastalardaki benzer lezyonlardan ayırıcı tanısı yapıldı. Lezyonların travma ile tekrarlayıp kendiliğinden iyileşmesi ve diğer hastalıklardan klinik ve laboratuvar olarak ayırt edilen olgularımıza ABH tanısı konuldu.

Tedavisi semptomatik olan bu antitenin ani hava yolu obstrüksiyonu ve ölüme yol açabilmesi nedeniyle hasta bilgilendirilmelidir. Eğer herhangi bir nedenle genel anestezi alacaksa anesteziyologa, cerraha entübasyon veya ekstübasyon gibi işlemlerden sonra olayın tekrarlayabileceği bildirilmelidir. Sekonder enfeksiyonlardan korumak için klorheksidinli gargaralar, antiinflamatuvar özelliğinden dolayı benzidamin hidrokloridli gargaralar, özellikle de inhaler ajan kullanımından sonra su ile gargara önerilebilmektedir. Askorbic acid/sitroflavonoid günde 200 mg ile rekürrensleri önlemede faydalı olabilmektedir<sup>8</sup>. Olgularımıza

tedavide gentian-violet %0.5 solüsyon ile atuşman ve inhaler uygulamasından sonra su ile gargara yapması önerildi, sert yiyecek, sıcak içecekler yasaklandı, olası hava yolu obstrüksiyonuna karşı uyarıldı. Lezyonları iz bırakmadan iyileşti, 2 yıllık takiplerde sadece 2. olguda bir kez rekürrens görüldü.

Az rastlanan, rekürrens gösteren ve ani ölüme neden olabilen bu antiteye dermatologların dikkatini çekmek amacıyla iki olguyu bilgilerinize sunmayı uygun bulduk.

#### Kaynaklar

1. Grinspan D, Abulafia J, Lanfranchi H: Angina bullosa hemorrhagica. *Int J Dermatol* 1999; 38: 525-8.
2. Deblauwe BM, van der Waal I: Blood blisters of the oral mucosa. *J Am Acad Dermatol* 1994; 31: 341-4.
3. Stephenson P, Slamey P-J, Scully C et al: Angina bullosa hemorrhagica: clinical and laboratory features in 30 patients. *Oral Surg* 1987; 63: 560-5.
4. Kirtschig G, Happle R: Stomatopompholyx hemorrhagica. *J Am Acad Dermatol* 1994; 31(5): 804-5.
5. De las Heras ME, Moreno R, Nunez M et al: Angina bullosa hemorrhagica. *J Dermatol* 1996; 23: 507-9.
6. Higgins EM, du Vivier AW: Angina bullosa hemorrhagica-a possible relation to steroid inhalers. *Clin Exp Dermatol* 1991; 16: 244-6.
7. High AS, Main DM: Angina bullosa hemorrhagica: a complication of long-term steroid inhaler use. *Br Dent J* 1988; 165(10): 357.
8. Guillot B: Skin reactions to inhaled corticosteroids. Clinical aspects, incidence, avoidance, and management. *Am J Clin Dermatol* 2000; 1(2): 107-11.
9. Curran AE, Rives RW: Angina bullosa hemorrhagica an unusual problem following peridontal therapy. *J Periodontol* 2000; 71(11): 1770-3.
10. O'Riordan BC: Oral blood blisters in angina bullosa hemorrhagica secondary to trauma of eating and dental injection. *Br Dent J* 1989; 166(1): 7.