

# Hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia - relato de dois casos\*

## *Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia - report of two cases\**

Andreia Nogueira<sup>1 a,b</sup>  
Juan Piñero Maceira<sup>4 d</sup>

José Wilson Accioly Filho<sup>2 a,c</sup>  
Marcia Ramos-e-Silva<sup>5 a</sup>

Maria Cristina Ribeiro de Castro<sup>3 a</sup>

**Resumo:** Os autores apresentam dois casos de hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia, doença relativamente rara. Uma das pacientes apresentava lesões exuberantes e de localização incomum, já que é em geral situada na cabeça e/ou no pescoço. A histopatologia corada com HE e a imuno-histoquímica com fator VIII confirmaram o diagnóstico e a origem endotelial das lesões de ambas as pacientes.

Palavras-chave: eosinofilia; hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia.

**Summary:** The authors present two cases of the relatively uncommon disease angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia, which is usually located on the head and/or neck. One of the patients showed exuberant lesions and unusual site. Histopathology with HE and immunohistochemistry with factor VIII confirmed the diagnosis and the endothelial origin in both cases.

Key words: eosinophilia; angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia.

### INTRODUÇÃO

A hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia (Hale) é tumor vascular incomum com características clínicas e histopatológicas que permitem seu pronto diagnóstico.<sup>1</sup> Em 1969, quando essa doença foi descrita pela primeira vez, Wells & Whimster<sup>2</sup> denominaram-na hiperplasia angiolinfóide subcutânea com eosinofilia.

A Hale caracteriza-se por nódulos ou pápulas de aspecto angiomatóide, solitárias ou múltiplas, de localização predominante na cabeça, em especial em torno das orelhas, fronte e couro cabeludo, e no pescoço. De natureza

### INTRODUCTION

*Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE) is an uncommon vascular tumor with clinical and histopathologic characteristics that promptly permit its diagnosis.<sup>1</sup> In 1969, when this disease was first described, Wells & Whimster<sup>2</sup> called it subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia.*

*Solitary or multiple nodules or papules with an angiomatoid aspect characterize ALHE and its location is predominantly on the head, especially around the ears, forehead and scalp, and also the neck. Its origin is uncer-*

Recebido em 12.12.2001. / Received in December, 12<sup>th</sup> of 2001.

Aprovado pelo Conselho Consultivo e aceito para publicação em 22.05.2002. / Approved by the Consultive Council and accepted for publication in May, 22<sup>nd</sup> of 2002.

\* Trabalho realizado no <sup>a</sup> Serviço de Dermatologia e Curso de Pós-Graduação em Dermatologia, Faculdade de Medicina e HUCFF-UFRJ, Universidade Federal do Rio de Janeiro; <sup>b</sup> Instituto do Câncer do Ceará; <sup>c</sup> Serviço de Dermatologia, Faculdade de Medicina, Universidade Federal do Ceará; e <sup>d</sup> Departamento de Anatomia Patológica, Faculdade de Medicina e HUCFF-UFRJ, Universidade Federal do Rio de Janeiro / Work done at <sup>a</sup> "Serviço de Dermatologia e Curso de Pós-Graduação em Dermatologia", "Faculdade de Medicina e HUCFF-UFRJ", "Universidade Federal do Rio de Janeiro"; <sup>b</sup> "Instituto do Câncer do Ceará"; <sup>c</sup> "Serviço de Dermatologia, Faculdade de Medicina", "Universidade Federal do Ceará"; e <sup>d</sup> "Departamento de Anatomia Patológica", "Faculdade de Medicina e HUCFF-UFRJ", "Universidade Federal do Rio de Janeiro"

<sup>1</sup> Dermatologista do ICC, Fortaleza, CE / Dermatologist at the ICC, Fortaleza, CE

<sup>2</sup> Professor Adjunto e Chefe do Serviço de Dermatologia da UFC, Fortaleza, CE / Associate Professor and Head of Dermatology Service at UFC, Fortaleza, CE.

<sup>3</sup> Mestranda de Dermatologia da UFRJ, Rio de Janeiro, RJ / Masters student of Dermatology, UFRJ, Rio de Janeiro, RJ.

<sup>4</sup> Professor Adjunto de Anatomia Patológica da UFRJ, Rio de Janeiro, RJ / Associate Professor of Pathologic Anatomy at UFRJ, Rio de Janeiro, RJ.

<sup>5</sup> Professora Adjunto e Chefe do Serviço de Dermatologia da UFRJ, Rio de Janeiro, RJ / Associate Professor and Head of Dermatology Service at UFRJ, Rio de Janeiro, RJ.

incerta, tem sido chamada de hemangioma epitelióide, pseudogranuloma piogênico, angioplasia vascular, proliferação vascular intravenosa atípica e de nódulos inflamatórios angiomatosos. É com frequência confundida com a doença de Kimura.<sup>3-9</sup>

Apesar de haver grande variação nos achados histopatológicos da Hale, é provável que, na dependência dos diferentes estágios da doença e das respostas teciduais,<sup>6</sup> mostre basicamente dois componentes principais:

1. componente vascular, com marcada proliferação de células endoteliais, e
2. componente celular, com intenso infiltrado de linfócitos, histiócitos, e eosinófilos.<sup>6,7</sup>

## RELATO DOS CASOS

### Caso 1

Paciente do sexo feminino, de 20 anos, parda, natural e residente no Rio de Janeiro, notou o surgimento de pápulas no antebraço direito associadas a discreto prurido. As lesões evoluíram lenta e progressivamente por oito meses até que a paciente procurou o Hospital Clementino Fraga Filho, da Universidade Federal do Rio de Janeiro.

Negava traumatismos no local das lesões, sua história patológica pregressa, fisiológica, familiar e social não apresentava ocorrências dignas de nota, e não havia quadro semelhante na família ou em meio a seus conhecidos. A contagem de eosinófilos do sangue estava normal.

Ao exame dermatológico observavam-se lesões nodulares arredondadas, de diâmetro variável entre 0,2 e 0,5cm, eritemato-violáceas, algumas com pequena umbilicação central, não dolorosas à palpação, totalizando quatro lesões na face anterior do antebraço direito (Figuras 1A, 1B e 2A).

*tain and it has been called epithelioid hemangioma, pyogenic pseudogranuloma, vascular angioplasia, atypical intravenous vascular proliferation and angiomatous inflammatory nodules. There is a frequent misdiagnosis with Kimura's disease.<sup>3-9</sup>*

*Although there is a great variation in the histopathological findings of ALHE, it is probable that, depending on the different stages of the disease and of the tissular reaction,<sup>6</sup> it presents two main components:*

1. *vascular component, with marked proliferation of endothelial cells; and*
2. *cellular component, with intense infiltrate of lymphocytes, histiocytes and eosinophils.<sup>6,7</sup>*

## CASE REPORTS

### Case 1

*20-year-old black female, born and resident in Rio de Janeiro, noticed the onset of discretely pruritic papules on her right forearm. There was slow progression of the lesions for eight months before she sought medical advise at the Clementino Fraga Filho Hospital, of the Federal University of Rio de Janeiro.*

*The patient denied any past trauma on the site of the lesions, her past medical, physiologic, familial, and social history were inexpressive and there were no similar cases among her family or acquaintances. Blood eosinophils were normal in number.*

*At dermatological examination, a total of four nodular, round, erythemat-violaceous lesions, with 0.2 and 0.5 cm in diameter, were noticed on the anterior side of the right forearm. Some had a small central umbilication and were painful on palpation (Figures 1A, 1B and 2A).*

Figura 1 A:  
Caso 1 –  
Nódulos  
violáceos no  
antebraço  
direito.

Figura 1 B:  
Caso 1 –  
Nódulos  
violáceos no  
antebraço  
direito – close.

Figure 1A:  
Case 1 -  
violaceous  
nodules on  
the right fore-  
arm.

Figure 1B:  
Case 1- violaceous  
nodules  
on the right  
forearm -  
close.

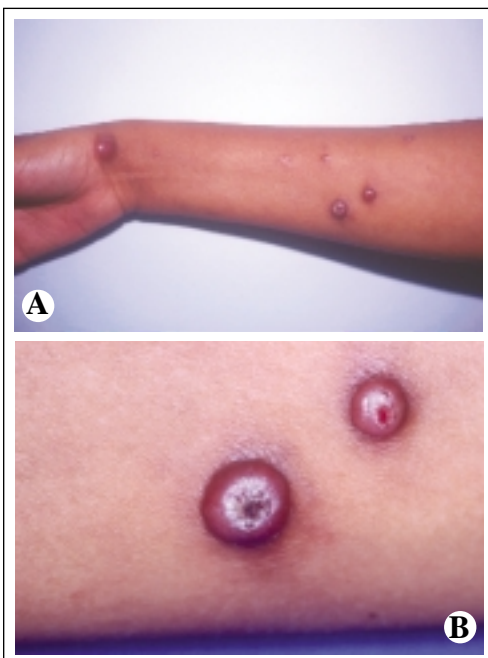


Figura 2A: Caso  
1 – Nódulos  
violáceos no  
punho.

Figura 2B: Caso 1 –  
Histopatologia  
(HE – 40X) prolifera-  
ção de vasos  
sangüíneos com  
luz alargada na  
derme.

Figure 2A: Case  
1-violaceous  
nodules on the  
right wrist.  
Figure 2B: Case  
1 - histopatho-  
logy (HE - 40X)  
proliferation of  
blood vessels  
with enlarged  
lumen in the  
dermis.

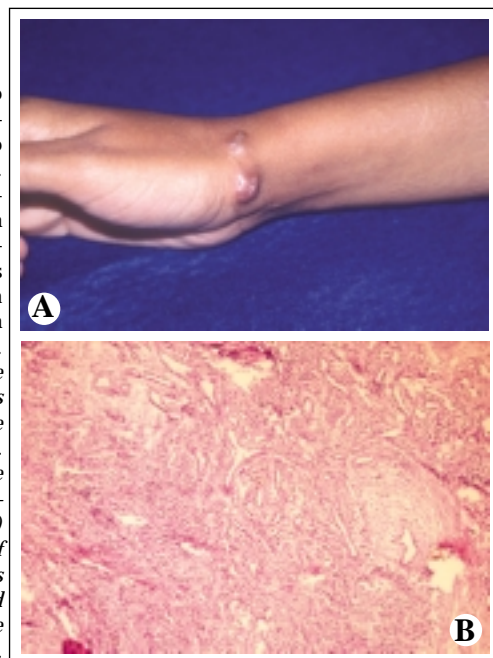


Figura 3A: Caso 1 – Histopatologia (HE – 40X) vasos sanguíneos forrados por células endoteliais de núcleos grandes e citoplasma eosinofílico, que se projetam para dentro da luz.

Figura 3B: Caso 1 – Imuno-histoquímica (Fator 8 – 40X) células endoteliais dos vasos exibem imunoreatividade ao antígeno relacionado ao fator VIII.

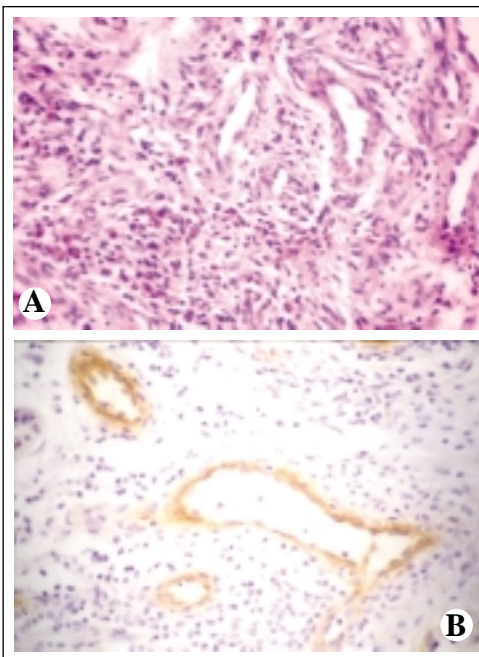


Figure 3A: Case 1 - histopathology (HE - 40X) blood vessels paved by endothelial cells with large nuclei and eosinophilic cytoplasm, projected into the lumen.

Figure 3B: Case 1 - immunohistochemistry (Factor 8 - 40X) endothelial cells of the blood vessels show immunoreactivity to the antigen related to factor VIII.

Foi realizada biópsia de uma dessas lesões (Figuras 2B e 3A), e o exame histopatológico revelou proliferação de vasos de calibres variados, em arranjo nodular, e circundados por infiltrado inflamatório de linfócitos e histiócitos, mas principalmente com grande número de eosinófilos, em toda a extensão da derme. Esses vasos mostravam paredes espessadas com células endoteliais de citoplasma amplo e eosinofílico, às vezes com vacúolos, fazendo uma protusão para o lúmen. O diagnóstico foi de Hale. O exame de imuno-histoquímica foi positivo para o fator VIII, provando a origem endotelial dessas células (Figura 3B).

A paciente foi submetida a injeções intralesionais de corticóide, com boa resposta inicial. Após seis meses, as lesões tornaram-se resistentes a essa terapia, e não ocorreram mais melhoras. Optou-se então pela criocirurgia com nitrogênio líquido, havendo desaparecimento total das lesões.

A biopsy from one of these lesions (Figures 2B and 3A) was obtained and the histopathological examination showed a proliferation of blood vessels with various sizes, in a nodular arrangement, surrounded by an inflammatory infiltrate of lymphocytes and histiocytes, but mainly with a large number of eosinophils, in all extension of the dermis. These vessels had thickened walls composed of endothelial cells with large and eosinophilic cytoplasm, sometimes with vacuoles, protruding into the lumen. The diagnosis was ALHE. The immunohistochemical examination was positive for factor VIII, proving the endothelial origin of these cells (Figure 3B).

The patient was submitted to intralesional steroid injections with a good initial response. After six months, the lesions became resistant to this therapy and there was no more improvement. Cryosurgery with liquid nitrogen was then indicated with total disappearance of the lesions.

## Caso 2

Paciente do sexo feminino, de 35 anos, branca, natural e residente em Fortaleza, procurou o Hospital Walter Cantídio, da Universidade Federal do Ceará, porque notou o aparecimento de pequenos nódulos violáceos e pruriginosos na orelha esquerda e por trás dela, que julgava se terem iniciado após picadas de inseto no local. A paciente não sabia precisar o tempo de evolução.

Não havia problemas significativos em sua história patológica

## Case 2

35-year-old white female, born and resident in Fortaleza, sought medical attention at the Walter Cantídio Hospital, of the Federal University of Ceará, because she noticed the onset of small pruritic violaceous nodules on and behind her left ear, which, she thought, began after insect bites at this site. The patient was not certain when the lesions began.

There were no significant problems in her past medical, physiologic, familial, and social history

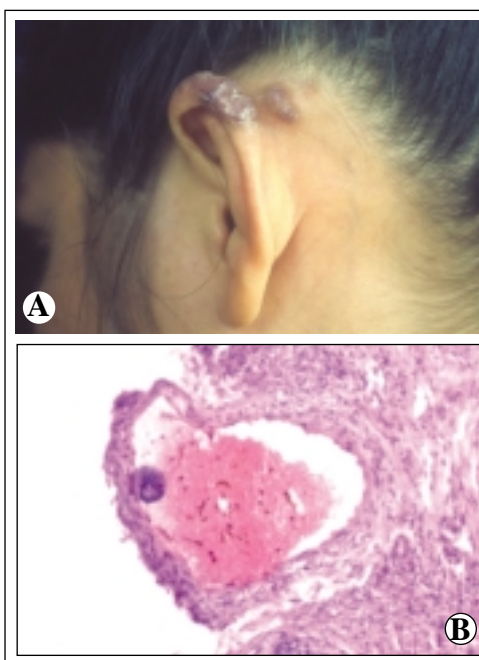


Figura 4A: Caso 2 – Nódulos violáceos na parte superior da orelha e região retroauricular esquerda.

Figura 4B: Caso 2 – Histopatologia (HE – 16X) proliferação de vasos sanguíneos com luz alargada na derme.

Figure 4A: Case 2 - violaceous nodules on the upper left ear lobe and retroauricular region.

Figure 4B: Case 2 - histopathology (HE - 16X) proliferation of blood vessels with enlarged lumen in the dermis.



Figura 5A: Caso 2 – Histopatologia (HE – 16X) proliferação de vasos sangüíneos com luz alargada na derme.

Figura 5B: Caso 2 – Histopatologia (HE – 100X) infiltrado inflamatório de linfócitos, histiócitos e alguns eosinófilos no estroma em torno dos vasos.

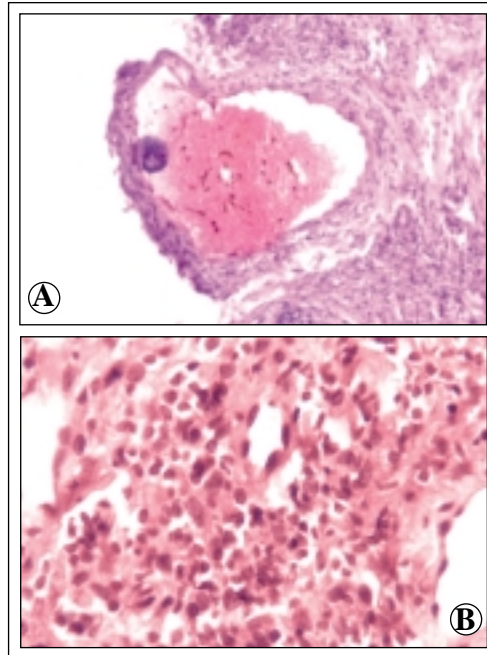


Figure 5A: Case 2 - histopathology (HE - 16X) proliferation of blood vessels with enlarged lumen in the dermis.

Figure 5B: Case 2 - histopathology (HE - 100X) inflammatory infiltrate of lymphocytes, histiocytes and some eosinophils in the stroma around the vessels.

pregressa, fisiológica, familiar e social, nem relatava quadros semelhantes entre familiares ou contactantes. Os eosinófilos sangüíneos apresentavam número normal.

O exame dermatológico mostrava duas lesões papulonodulares, eritemato-violáceas, de aspecto angiomatóide, na porção superior da orelha esquerda e região retroauricular esquerda (Figura 4A).

O exame histopatológico da lesão da orelha (Figuras 5A, 5B e 6A) revelou proliferação dérmica de vasos sangüíneos irregulares, de paredes espessas forradas por células endoteliais dilatadas, que se projetavam para dentro de suas luzes. Essas células tinham abundante citoplasma eosinofílico e núcleos grandes. O estroma consistia de tecido fibrovascular com linfócitos, eosinófilos e mastócitos. Essas características são típicas de Hale, e os estudos imunohistoquímicos demonstraram positividade para antígeno relacionado ao fator VIII (Figura 6B).

As lesões foram tratadas com associação de corticosteróide intralesional e criocirurgia com nitrogênio líquido (uma sessão a cada três semanas). Após seis meses de tratamento, havia involução parcial da lesão maior e regressão completa da menor.

## DISCUSSÃO

A Hale é tumor benigno raro que, em geral, mostra uma ou poucas lesões na cabeça e pescoço de adultos jovens.<sup>10</sup> Cresce lentamente, é autolimitada e caracterizada por intensa proliferação de células endo-

and she informed there were no members of her family or contacts with similar lesions. Eosinophils blood count was normal.

The dermatological exam showed two papulonodular, erythematous-violaceous lesions with angiomatoid aspect, on the superior portion of the left ear and left retroauricular region (Figure 4A).

The histopathological exam of the ear lesion (Figures 5A, 5B and 6A) revealed a dermal proliferation of irregular blood vessels, with thickened walls covered by dilated endothelial cells that projected into the lumen. These cells had an abundant eosinophilic cytoplasm and large nuclei. The dermis consisted of a fibrovascular stroma with lymphocytes, eosinophils and mastocytes. These characteristics are typical of ALHE and the immunohistochemical studies demonstrated positivity to the antigen related to factor VIII (Figure 6B).

The lesions were treated with an association of intralesional steroid and cryosurgery with liquid nitrogen (one session each three weeks). After six months of treatment, there was a partial involution of the larger lesion and total regression of the smaller one.

## DISCUSSION

ALHE is a rare benign tumor that, in general, shows one or a few lesions on the head and neck of young adults.<sup>10</sup> It grows slowly, is auto-limited and characterized by an intense endothelial cell prolifer-

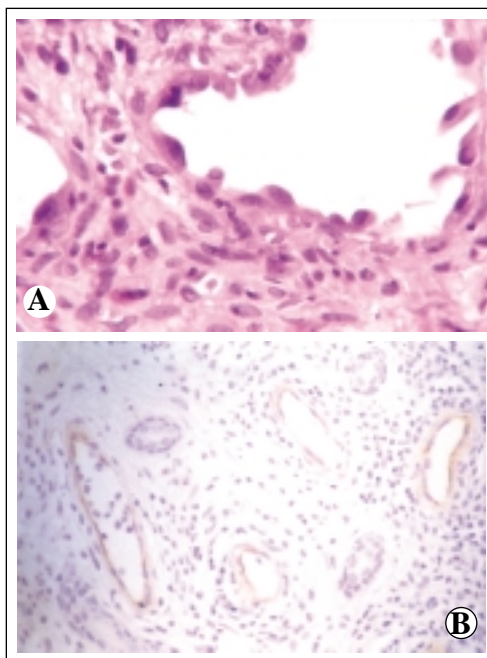


Figure 6A: Case 2 - histopathology (HE - 100X) endothelial cells with large nuclei and eosinophilic cytoplasm, projected into the lumen.

Figure 6B: Case 2 - immunohistochemistry (Factor 8 - 40X) vessels paved by endothelial cells that show immunoreactivity to the antigen related to factor VIII.

Figura 6A: Caso 2 – Histopatologia (HE – 100X) células endoteliais de núcleos grandes e citoplasma eosinofílico projetando-se para dentro da luz dos vasos sangüíneos.

Figura 6B: Caso 2 – Imuno-histoquímica (Fator 8 – 40X) vasos forrados por células endoteliais que mostram imunoreatividade ao antígeno relacionado ao fator VIII.

teliais. Acredita-se ser mal formação resultante de um *shunt* arteriovenoso subjacente. Sua patogênese é desconhecida, representando provavelmente verdadeira neoplasia vascular ou fenômeno reativo cicatricial após uma variedade de agressões, como trauma, infecção ou desequilíbrio humoral.<sup>3,5</sup> É primariamente um processo vascular, e suas outras alterações, como a presença de folículos linfóides e eosinófilos, parecem ser secundárias. Estados de hiperestrogenemia podem também estar relacionados a essa doença.<sup>5,10</sup>

A segunda paciente aqui focalizada atribuiu o aparecimento dos nódulos a picadas de inseto, e é sabido que biópsias profundas revelam *shunt* arteriovenoso em porcentagem significativa de casos.<sup>4,5</sup> Assim, considerando que a Hale representa processo hiperplástico reativo como resultado de dano e reparação de uma artéria ou veia,<sup>5</sup> é possível que picadas de inseto possam contribuir para o desenvolvimento dos nódulos.

Há muita confusão na literatura médica sobre a doença de Kimura e a Hale, termos usados até mesmo como sinônimos, e alguns autores sugerem ser a doença de Kimura parte do espectro da Hale.<sup>5</sup> Ambas tendem a provocar lesões nodulares, envolvem primariamente a cabeça e o pescoço, e tendem também a persistir. A doença de Kimura mostra nódulos subcutâneos da cor da pele normal, enquanto a Hale apresenta nódulos de cor avermelhada e/ou violácea, o que reflete sua natureza vascular.<sup>11</sup> Ackerman *et al.*<sup>11</sup> referem que as semelhanças histopatológicas são várias, já que ambas podem:

1. envolver a derme e o tecido subcutâneo;
2. ter infiltrado composto de linfócitos e eosinófilos;
3. ter vasos forrados por células endoteliais que podem estar dilatadas e conter citoplasma abundante;
4. ter fibroplasia e muitas células plasmáticas; e
5. poupar as estruturas anexiais epiteliais e não epiteliais.

Seu diagnóstico diferencial histopatológico é baseado no seguinte:<sup>11</sup>

### **Hale**

1. não costuma se assemelhar a tecido linfóide quando observada em pequeno aumento;
2. é principalmente um distúrbio de vasos sangüíneos;
3. mostra estruturas semelhantes a veias anormais, muito dilatadas, na derme e/ou gordura subcutânea;
4. apresenta pouco ou nenhum folículo linfóide;
5. encontra-se com freqüência músculo liso nas paredes das estruturas semelhantes a veias;
6. tem mucina em abundância dentro das paredes das estruturas semelhantes a veias;
7. as células endoteliais dilatadas, algumas delas poligonais, projetam-se bastante para dentro da luz dos vasos;
8. é comum ter um ou mais vacúolos no citoplasma das células endoteliais anormais;
9. os eosinófilos variam em número, de ausentes a numerosos;
10. a gordura subcutânea não é substituída por tecido fibroso;

*It is believed that it is a malformation resulting from a subadjacent arterio-venous shunt. Its pathogenesis is unknown, probably representing a true vascular neoplasia or a reactive cicatricial phenomenon after a variety of aggressions, such as trauma, infection, or humoral desequilibrium.<sup>3,5</sup> It is primarily a vascular process and its other alterations, as the presence of lymphoid follicles and eosinophils, seem secondary. Hyperestrogenemia states can be related to this disease.<sup>5,10</sup>*

*Our second patient attributed the onset of the nodules to insect bites and it is known that deep biopsies reveal an arterio-venous shunt in a significant percentage of cases.<sup>4,5</sup> Therefore, if we consider that ALHE represents a reactive hyperplastic process as a result of injury and reparation of a artery or vein,<sup>5</sup> it is possible that insect bites can contribute to the development of the nodules.*

*There is great confusion in the medical literature surrounding Kimura's disease and ALHE, names used even as synonyms, and there are authors suggesting that Kimura's disease is part of the spectrum of ALHE.<sup>5</sup> Both have the tendency to produce nodular lesions, involving primarily the head and neck, and also have the tendency to persist. Kimura's disease shows normal skin color subcutaneous nodules while ALHE presents reddish and/or violaceous nodules, reflecting its vascular nature.<sup>11</sup> Ackerman *et al.*<sup>11</sup> refer that the histopathological similarities are many, as both can:*

1. involve dermis and subcutaneous tissue;
2. have a infiltrate composed of lymphocytes and eosinophils;
3. have vessels paved by endothelial cells, which can be dilated and contain abundant cytoplasm;
4. have fibroplasia and many plasmatic cells; and
5. not affect epithelial and non-epithelial adnexal structures.

*Its histopathological differential diagnosis is based on the following:<sup>11</sup>*

### **Alhe**

1. does not look like lymphoid tissue when observed under low magnification;
2. is predominantly a blood vessel disturbance;
3. shows structures similar to very dilated, abnormal veins, in the dermis and/or subcutaneous fat;
4. presents few or no lymphoid follicles;
5. has smooth muscle frequently on the walls of the structures similar to veins;
6. has mucin in abundance inside the walls of the structures similar to veins;
7. shows the dilated endothelial cells, some polygonal, projecting themselves deep into the lumen of the vessels;
8. commonly shows one or more vacuoles in the cytoplasm of the abnormal endothelial cells;
9. has a variation in the number of eosinophils from absent to numerous;
10. presents substitution of subcutaneous fat by fibrous tissue;

11. não há acometimento da fáscia.

### Doença de Kimura

1. assemelha-se a tecido linfóide quando observada em pequeno aumento;
2. é um distúrbio dos folículos linfóides;
3. mostra estruturas anormais semelhantes a veias sem grande dilatação;
4. mostra muitos folículos linfóides;
5. não se encontra músculo liso na parede dos vasos;
6. não há mucina na parede dos vasos;
7. as células endoteliais não se projetam muito para dentro da luz dos vasos;
8. não há vacúolos nessas células endoteliais;
9. os eosinófilos são sempre numerosos;
10. a gordura subcutânea é com freqüência substituída por tecido fibroso;
11. há extensão para a fáscia e por vezes até para dentro do músculo esquelético.

O tratamento de eleição é a excisão cirúrgica, apesar de recidivas serem freqüentes.<sup>6</sup> Outras modalidades terapêuticas têm sido propostas, entre elas: criocirurgia com nitrogênio líquido, laserterapia,<sup>12</sup> radioterapia local,<sup>13</sup> ácido retinóico aromático,<sup>14</sup> vinblastina em paciente com extenso envolvimento cutâneo e mucoso,<sup>15</sup> acitretina<sup>16</sup> e corticoterapia local e/ou intralesional, especialmente em casos recidivantes. Remissão espontânea pode ocorrer.<sup>5</sup>

Na primeira paciente, cujas lesões recidivaram após as injeções intralesionais de corticosteróide, não houve recorrência depois da criocirurgia nos seis meses seguintes; por isso, para ela, essa modalidade foi uma boa opção terapêutica para sua doença. Na outra, entretanto, desde o início, a associação de corticoterapia e criocirurgia resolveu apenas parcialmente o quadro nos primeiros seis meses. Para essa paciente considera-se no momento a possibilidade de fazer uma exérese completa do nódulo maior, já que lesões grandes tendem a persistir, a não ser que o shunt arteriovenoso seja excisado.<sup>17</sup>

Os autores julgam interessantes esses dois casos porque a primeira paciente era do sexo feminino, tinha 20 anos de idade e apresentava lesões exuberantes e pruriginosas, que, pela aparência e localização, mimetizavam clinicamente um ceratoacantoma. O fato de serem no antebraço direito não condiz com os achados habituais da Hale. Na segunda paciente, também do sexo feminino, os aspectos morfológicos, localização e distribuição, a presença de prurido, gênero e idade de início da doença estão de acordo com os achados de Wilson-Jones & Bleehen, em 1970,<sup>3</sup> e de Olsen & Helwig, em 1985.<sup>5</sup> A histopatologia corada com HE e a imuno-histoquímica com fator VIII confirmaram a origem endotelial das lesões de ambas as pacientes. O fato de não apresentarem eosinofilia não invalida o diagnóstico, já que essa característica é encontrada em não mais do que proporção que varia de 10 a 15% dos casos.<sup>3,5</sup> □

11. does not present fascia involvement.

### Kimura's disease

1. is similar to lymphoid tissue when observed under low magnification;
2. is predominantly a lymphoid follicle disturbance;
3. shows abnormal structures similar to veins without great dilatation;
4. presents many lymphoid follicles;
5. has no smooth muscle on the walls of the vessels;
6. has no mucin inside the walls of the vessels;
7. shows no projection of the endothelial cells into the lumen of the vessels;
8. shows no vacuoles in these endothelial cells;
9. eosinophils are always numerous;
10. shows frequent substitution of subcutaneous fat by fibrous tissue;
11. presents extension to fascia and sometimes even to the skeletal muscle.

The treatment of choice is surgical excision, although recurrences are frequent.<sup>6</sup> Other therapeutic modalities have been proposed, among them: cryosurgery with liquid nitrogen, lasertherapy,<sup>12</sup> local radiotherapy,<sup>13</sup> aromatic retinoic acid,<sup>14</sup> vinblastine in patient with extensive cutaneous and mucous involvement,<sup>15</sup> acitretin<sup>16</sup> and local and/or intralesional steroids, especially in recurrent cases. Spontaneous remission may occur.<sup>5</sup>

The first patient, in whom there was recurrence of the lesions after the intralesional injection of steroid, did not show recurrence after cryosurgery for the following six months, and because of this, for her, this modality was a good therapeutic option. In the other patient, the association since the beginning of steroid and cryosurgery totally improved the smaller lesions but reduced only partially the larger lesion in the first six months of therapy. For this patient the possibility of complete surgical excision of the larger nodule is being considered, since larger lesions tend to persist unless the arterio-venous shunt is removed.<sup>17</sup>

We consider these are two very interesting cases because our first patient was a 20-year-old female presenting exuberant and pruritic lesions that by their aspect and location clinically mimic a keratoacanthoma. The fact that they were located on the right forearm is not consistent with the usual findings of ALHE. In our second patient also a female, the morphologic aspects, location and distribution, the presence of pruritus, gender and age of onset of the disease are in accordance with the findings of Wilson-Jones & Bleehen, in 1970,<sup>3</sup> and of Olsen & Helwig, in 1985.<sup>5</sup> The histopathology stained by HE and the immunohistochemistry with factor VIII confirmed the endothelial origin of the lesions in both patients. The fact that there was no eosinophilia does not invalidate the diagnosis, since this characteristic is found in not more than 10-15% of the cases.<sup>3,5</sup> □

**REFERÊNCIAS / REFERENCES**

1. Mehregan AH, Shapiro L. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Arch Dermatol 1971;103:50-7.
2. Wells GC, Whimster IW. Subcutaneous angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Br J Dermatol 1969;81:1-15.
3. Wilson-Jones E, Bleehen SS. Inflammatory angiomatous nodules with abnormal blood vessels occurring about the ears and scalp (pseudo or atypical pyogenic granuloma). Br J Dermatol 1969;81:804-16.
4. Rosai J. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Its nosological position in the spectrum of histiocytoid hemangioma. Am J Dermatopathol 1982;4:175-84.
5. Olsen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. A clinical study of 116 patients. J Am Acad Dermatol 1985;12:781-96.
6. Florião RA, Carvalho CR, Marques AS, Silva RR. Hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia. Doença de Kimura. An bras Dermatol 1986;61:241-4.
7. Diogenes MJN, Menezes DB, Cabral SE, Guedes ACM, Furtado T. Hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia. Relato de um caso de involução espontânea. Med Cut ILA 1990;18:323-6.
8. Kede MPV, Alves MFGS, Ramos-e-Silva M. Hiperplasia angiolinfóide com eosinofilia. An bras Dermatol 1993;68:263-5.
9. Requena L, Sangueza OP. Cutaneous vascular proliferations. Part II. Hyperplasias and benign neoplasms. J Am Acad Dermatol 1997;37:887-920.
10. Moy RL, Luftman DB, Nguyen QH, Amenta JS. Estrogen receptors and the response to sex hormones in angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. Arch Dermatol 1992;128:825-8.
11. Ackerman, Briggs PL, Bravo F. Differential diagnosis in Dermatopathology III. Philadelphia: Lea & Febiger; 1993:62.
12. Thompson JV, Coman M, Williamson C, Ward PH. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the external ear canal. Arch Otolaryngol 1981;107:316-9.
13. Castro C, Winkelmann RK. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia in the skin. Cancer 1974;34:1696-705.
14. Alsina M. Therapeutic response of angiolymphoid hyperplasia to treatment with aromatic retinoic acid. Med Cut ILA 1984;12:519-24.
15. Massa MC. Angiolymphoid hyperplasia demonstrating extensive skin and mucosal lesions controlled with vinblastine therapy. J Am Acad Dermatol 1984;118:333.
16. Marcoux C, Bourlond A, Decroix J. Hyperplasie angiolymphoïde (HALE). rémission sous acitrétine. Ann Dermatol venereol 1991;118:217-221.
17. Bendl BJ, Asano K, Lewis RJ. Nodular angioblastic hyperplasia with eosinophilia and lymphofolliculosis. Cutis 1977;19:327-9.

---

ENDEREÇO PARA CORRESPONDÊNCIA: / MAILING ADDRESS:

Marcia Ramos-e-Silva

Rua Sorocaba nº 464 / 205

Rio de Janeiro RJ 22271-110

Tel/Fax: (21) 2286-4632

E-mail: ramos.e.silva@dermato.med.br