



EDİTÖRE MEKTUP/LETTER TO THE EDITOR

Keilitis granülozmatosalı iki olgu sunumu

Two cases of cheilitis granulomatosa

Emine Tuğba Alataş¹, Asude Kara², Gürsoy Doğan¹, Hilal Semra Hançer¹, Ceyda Tetik Aydoğdu¹

¹Muğla Sıtkı Koçman Üniversitesi Tıp Fakültesi Deri ve Zührevi Hastalıklar Anabilim Dalı; Muğla, Turkey

²Muğla Sıtkı Koçman Üniversitesi Eğitim ve Araştırma Hastanesi Deri ve Zührevi Hastalıklar Kliniği; Muğla, Turkey

Cukurova Medical Journal 2016;41(2):420-421.

Sayın Editör,

Keilitis granülozmatosa sıklıkla üst dudakta veya her iki dudakta görülen, önceleri epizodik iken daha sonra kalıcı olan ödemle ve histopatolojik olarak granülom formasyonu ile karakterize bir hastalıktır. Rekürren fasiyal sinir paralizisi, skrotal dil ve orofasiyal ödem triadı ile bilinen Melkersson-Rosenthal sendromunun bulgularından birisidir. Bu sendromda klasik triadın görülmesi nadirdir ve genellikle monosemptomatik veya oligosemptomatik tutulum izlenir. Etyopatogenezi tam olarak bilinmemekle beraber, genetik yatkınlık, immün yetmezlik, enfeksiyöz etkenler, besin intoleransı, stres gibi birçok faktör suçlanmıştır. Nadir görülen bir dermatoz olup genellikle 10-30 yaşlar arasında ve kadınlarda sık görülmektedir^{1,2,3}. Burada 27 ve 35 yaşlarında keilitis granülozmatosalı iki kadın olgu sunulmaktadır.

Sunulan ilk olgu yirmi yedi yaşında kadın hasta olup alt dudakta şişlik şikayeti ile başvurdu. Hasta şikayetin uzun yıllardır devam ettiğini, dudağındaki şişliğin aniden geliştiğini ve yaklaşık bir ayda gerilediğini belirtti. Özgeçmişinde küçük yaşlarda yüz felci geçirdiğini belirten hastanın ailesinde ve çocuklarında benzer şikayetler olmadığı öğrenildi. Sistemik muayenede yüzün sağ tarafında periferik fasiyal paralizi izlendi. Dilde patolojik bulgu saptanmadı. Dermatolojik muayenede; alt dudakta ödem izlendi. Hastaya “Melkersson Rosenthal Sendromu” tanısı konularak 2 kez intralezyonel triamsinolon asetonid tedavisi uygulandı ve oral doksisisiklin tedavisi başlandı. Alt dudaktaki ödemde gerileme izlenirken, dudağın normal boyutlarına

gelmediği görüldü. Sekiz ay boyunca devam eden izlemde bir kez atağın tekrarladığı gözlemlendi.

İkinci olgumuz otuz beş yaşında kadın hasta olup ilk kez 5 yıl önce diş çekimi sonrasında gelişen üst dudakta şişlik şikayeti ile başvurdu. Şişliğin ayda bir kez meydana geldiğini ve bir süre sonra kendiliğinden gerilediğini; ancak tamamen eski haline dönmediğini belirtti. Özgeçmişinde 7 yaşında yüz felci geçirdiği, soygeçmişinde özellik olmadığı öğrenildi. Sistemik muayenede sağ yüz bölgesinde periferik paralizi saptanan hastanın dil üst yüzeyinde yarıklar izlendi. Dermatolojik muayenesinde; üst dudakta ödem saptandı. Hastaya “Melkersson Rosenthal Sendromu” tanısı konularak oral roksitromisin 300 mg/gün tedavisi başlandı. 2 ay sonundaki izlemde dudaktaki ödemde gerileme izlendi.

Keilitis granülozmatosa önceleri epizodik iken daha sonra kalıcı olan fasiyal ödemle ve histopatolojik olarak granülom formasyonu ile karakterize bir hastalıktır. Rekürren fasiyal sinir paralizisi, skrotal dil ve orofasiyal ödem triadı ile bilinen Melkersson-Rosenthal sendromunun bulgularından birisidir. Bu sendromda klasik triadın görülmesi nadirdir ve genellikle monosemptomatik veya oligosemptomatik tutulum izlenir¹.

Skrotal dil veya fasiyal paralizi olmadan sadece keilitis granülozmatosa varlığı Miescher sendromu olarak adlandırılır. 1985 yılında Wienssenfield tarafından orofasiyal granülozmatosis tanımı öne sürülmüştür. Günümüzde hem keilitis granülozmatosa hem de Melkersson-Rosenthal

sendromu orofasyal granülopatinin alt grubu olarak kabul edilir⁴.

Etyolojisi tam olarak bilinmemekle birlikte otozomal dominant olduğu 9p 11 kromozomunun sorumlu gen olduğu öne sürülmüştür⁴. Genetik yatkınlık, immün yetmezlik, enfeksiyöz etkenler, besin intoleransı, stres gibi birçok faktör suçlanmıştır³. Ayrıca allerjik reaksiyonlar, odontojenik enfeksiyonlar, otoimmün durumlar, Crohn hastalığı ve sarkoidoz suçlanan faktörler arasındadır⁴. Genç erişkinlerde görülen bir tablo olmakla birlikte literatürde bir çocuk hastada da bildirilmiştir⁵. Her iki cinsiyette eşit sıklıkta görülmekle birlikte 220 vakalık bir seride en sık kadınlarda görüldüğü öne sürülmüştür⁶.

Ayrırcı tanıda anjiyödem, derin mikoz, yabancı cisim reaksiyonları, mikobakteri enfeksiyonları, sarkoidoz,

Crohn hastalığı ve Wegener granülopatisi düşünülür^{7,8}. Olgularımızda ödemin persistan seyretmesi nedeniyle anjiyödemden ayırdık. Gastrointestinal ve solunum sistemi muayenelerinin normal olduğu için sarkoidoz, Crohn hastalığı ve Wegener granülopatisini ekarte ettik.

Tedavide intralezyonel steroid, oral tetrasiklin, oral roksitromisin, dapson ve son yıllarda infliksimab önerilmektedir^{4,9}. Olgumuzun birine intralezyonel triamsinolon asetonid ve oral doksisisiklin, diğere oral roksitromisin tedavisi başladık. Hastaların izleminde lezyonlarda gerileme saptadık.

Sonuç olarak keilitis granülopatili iki kadın olgu sunulmaktadır. Bu hastalıkta etyoloji tam olarak bilinmediğinden tedavisi zordur. Ayrıca ayrırcı tanıda pekçok hastalık olduğu için multidisipliner yaklaşım gerektirmektedir.



Resim 1. Alt dudakta ödem (1. olgu)



Resim 2. (A) Üst dudakta ödem (B) Üst dudakta ödem ve skrotal dil (2. olgu)

KAYNAKLAR

1. Rangdhol RV, Madhulika N, Dany A, Jeelani S, Asokan GS. Idiopathic orofacial granulomatosis-a diagnostic and treatment challenge. *J Clin Diagn Res.* 2014;8:ZD07-10.
2. Bohra S, Kariya PB, Bargale SD, Kiran S. Clinicopathological significance of Melkersson-Rosenthal syndrome. *BMJ Case Rep.* 2015:2015.
3. Allen CM, Camisa C. Oral disease. In *Dermatology*. 3rd. ed. (Eds JL Bologna, JL Jorizzo, RP Rapini):1149-68. Philadelphia, Elsevier, 2012.
4. Vibhute NA, Vibhute AH, Daule NR. Cheilitis granulomatosa: a case report with review of literature. *Indian J Dermatol.* 2013;58:242.
5. Olivier V, Lacour JP, Castanet J, Perrin C, Ortonne JP. Cheilitis granulomatosa in a child. *Arch Pediatr.* 2000;7:274-7.
6. Zimmer WM, Rogers RS, 3rd, Reeve CM, Sheridan PJ. Orofacial manifestations of Melkersson-Rosenthal syndrome. a study of 42 patients and review of 220 cases from the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1992;74:610-9.
7. Baykal C. Ağz hastalıkları. *Dermatoloji Atlası*. 3.Baskı, İstanbul, Nobel Tıp Kitabevi. 2012.
8. Critchlow WA, Chang D. Cheilitis granulomatosa: a review. *Head Neck Pathol.* 2014;8:209-13.
9. Ishiguro E, Hatamochi A, Hamasaki Y, Ishikawa S, Yamazaki S. Successful treatment of granulomatous cheilitis with roxithromycin. *J Dermatol.* 2008;35:598-600.