

RELATO DE CASO

ÚLCERA DE LIPSCHÜTZ: DESAFIO DIAGNÓSTICO EM ÚLCERAS VULVARES

LIPSCHÜTZ ULCER: DIAGNOSTIC CHALLENGE IN VULVAR ULCERS

Giovanna dos Santos Pereira¹, Flávia da Silva Oliveira², Thais Alves Ribeiro², Ana Paula Rodrigues Oliveira³, Verônica Maciel Zulian⁴, Virgílio Ribeiro Guedes⁵, Ana Carolina Batista de Souza Guedes⁶.

RESUMO

A úlcera de Lipschütz (UL) foi descrita em 1913 por Benjamin Lipschütz. Possui etiologia desconhecida e é acompanhada de dor, edema e linfadenopatia local, febre, mal-estar geral, mialgia e odinofagia. Os diagnósticos diferenciais incluem doenças infecciosas, neoplasia, trauma e abuso sexual. Relatamos um caso de uma jovem de 14 anos de idade que desenvolveu um quadro de úlcera genital precedido por sintomas gerais inespecíficos. Exames complementares excluíram doenças infecciosas e inflamatórias. Outras causas habituais também foram excluídas. Estabeleceu-se, então, o diagnóstico de UL. A paciente apresentou melhora clínica importante e progressiva, e recebeu alta hospitalar em bom estado geral, com lesão em regressão.

Palavras-chave: Úlcera genital, Lipschütz, Doenças da vulva.

 ACESSO LIVRE

Citação: Pereira GS, Oliveira FS, Ribeiro TA, Oliveira APR, Zulian VM, Guedes VR, Guedes ACBS (2017) Úlcera de Lipschütz: Desafio Diagnóstico em Úlceras Vulvares. Revista de Patologia do Tocantins, 4(3): 39-42.

Instituição: ¹Acadêmica de Medicina, Universidade Federal do Tocantins, Tocantins, Brasil; ²Residente em Ginecologia e Obstetrícia, Universidade Federal do Tocantins, Tocantins, Brasil; ³Acadêmica de Medicina, UnirG, Tocantins, Brasil; ⁴Acadêmica de Medicina, Pontifícia Universidade Católica de Goiás, Goiás, Brasil; ⁵Docente, Médico Patologista, Universidade Federal do Tocantins, Tocantins, Brasil; ⁶Ginecologista e Obstetra, Hospital e Maternidade Dona Regina Siqueira Campos, Tocantins, Brasil.

Autor correspondente: Giovanna dos Santos Pereira;
giovanna_662@hotmail.com

Editor: Guedes V. R. Medicina, Universidade Federal do Tocantins, Brasil.

Publicado: 26 de setembro de 2017.

Direitos Autorais: © 2017 Pereira et al. Este é um artigo de acesso aberto que permite o uso, a distribuição e a reprodução sem restrições em qualquer meio, desde que o autor original e a fonte sejam creditados.

Conflito de interesses: os autores declararam que não existem conflitos de interesses.

ABSTRACT

Lipschütz ulcer (UL) was described in 1913 by Benjamin Lipschütz. It has unknown etiology. Among the clinical manifestations, pain, edema and local lymphadenopathy, fever, malaise, myalgia and odynophagia are of particular emphasis. Differential diagnoses include infectious diseases, neoplasia, trauma, and sexual abuse. We reported a case of a 14-year-old girl who developed genital ulcer preceded by general nonspecific symptoms. Investigations excluded infectious and inflammatory diseases. Other common causes were also excluded. By eliminating other etiologies and presenting all the diagnostic criteria, the diagnosis of UL was established. The patient presented significant and progressive clinical improvement and was discharged in good general condition, with regression lesion.

Key-words: Genital ulcer, Lipschütz, Vulvar Diseases.

INTRODUÇÃO

Descrita pela primeira vez em 1913 por Benjamin Lipschütz, a úlcera de Lipschütz (UL) apresenta-se como lesões dolorosas únicas ou múltiplas preferencialmente em pequenos lábios da vulva de mulheres jovens sem atividade sexual prévia^{1,2}.

Embora de etiologia desconhecida, vários agentes infecciosos são sugeridos como fator causal: vírus herpes simples, vírus Epstein-Barr (EBV), citomegalovírus (CMV), vírus da caxumba, micoplasma, Influenza, *Salmonella typhi* e *Salomonella paratyphi*^{1,3-6}. Causas não infecciosas também são citadas na literatura, como doença de Behçet e a doença de Crohn¹.

Clinicamente, a doença tem surgimento súbito, manifestando-se com grandes ulcerações dolorosas em vulva e terço inferior da vagina^{7,8}. Geralmente com diâmetro maior que 1 cm e profunda, a UL apresenta borda avermelhada, padrão em espelho ou “kissing pattern”, e centro necrótico com exsudado acinzentado ou preto-acinzentado^{9,10}. O quadro clínico pode ainda ser constituído por alterações locais, como edema labial e adenopatia local, e sistêmicas, como febre, mal-estar geral, mialgia e odinofagia^{7,8}. O eritema e o edema secundário podem ser importantes e a celulite deve ser considerada⁹.

Os diagnósticos diferenciais da UL incluem patologias infecciosas, como doenças sexualmente transmissíveis, e não infecciosas, como neoplasia vulvar, trauma e abuso sexual^{3,11,12}.

RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, 14 anos de idade, menarca aos 12 anos. Foi admitida em serviço de emergência ginecológica e obstétrica, referenciada de outra unidade hospitalar. Afirmou surgimento súbito de duas lesões em região vulvar (pequenos lábios e fúrcula vaginal), associadas a edema local e dor intensa, precedidas por três dias de febre, astenia e odinofagia. Na ocasião, procurou atendimento médico, o qual prescreveu antibiótico oral (cefalexina) com a hipótese diagnóstica de bartolinite. Relata que, no segundo dia de tratamento domiciliar, procurou atendimento novamente devido a piora do quadro, quando, então, foi referenciada para este serviço.

Na admissão, a paciente negou traumatismo local, lesões genitais ou cutâneas prévias, histórico de doenças oftálmicas e início de vida sexual. Foram ainda descartadas ocorrências de corrimentos vaginais e histórico familiar e/ou pessoal que fossem relevantes no caso em estudo. Ao exame físico, a paciente encontrava-se em regular estado geral, hidratada, hipocorada e sem adenomegalias palpáveis. Ao exame ginecológico, observou-se presença de (1) lesão ulcerada em pequeno lábio direito, com base amarelada, superfície irregular e bordas finas e avermelhadas, com maior diâmetro em direção longitudinal e saída de secreção cinza-esbranquiçada e (2) lesão em pequeno lábio esquerdo, de tamanho menor que a primeira. Ambas com características semelhantes, sensíveis e dolorosas à palpação superficial (Figura 1).



Figura 1. Úlcera vulvar em 5º dia de evolução

A paciente foi internada para investigação diagnóstica e tratamento. Foram solicitados exames laboratoriais e iniciado tratamento sintomático. Exames laboratoriais do primeiro dia de internação hospitalar (DIH): hemoglobina = 9,2 g/dL; hematócrito = 27,8%, leucócitos = 18.000/mm³ com neutrofilia de 76%; velocidade de hemossedimentação (VHS) = 31mm/h e Proteína C Reativa (PCR) = 67,64 mg/dL. Iniciado tratamento empírico com fluconazol dose única, ceftriaxona via endovenosa, prednisona, mupirocina pomada no local e banhos de assento com permanganato de potássio. Apresentou sorologias negativas para sífilis, vírus da hepatite C, vírus da imunodeficiência humana, CMV, EBV e herpes vírus simples. Outros exames complementares também demonstraram resultados negativos: Fator Antinuclear (FAN), Anticoagulante Lúpico e Cardiopina.

Exames laboratoriais do oitavo DIH: hemoglobina = 10,5 g/dL; hematócrito = 31,5%; leucócitos = 7.250/mm³; neutrófilos = 57%; VHS = 30mm/h e PCR = 49,50 mg/dL. Devido à persistência das lesões ulceradas bilateralmente e quadro algico intenso, associado a edema considerável, foi realizada, então, cirurgia de debridamento e realização de biópsia das lesões (Figura 2).



Figura 2. A: Úlcera vulvar em 8º dia de evolução. B: Debridamento e biópsia de lesão vulvar.

O anatomopatológico evidenciou achados histológicos sugestivos de tecido de granulação e úlcera inespecífica. A paciente apresentou melhora clínica importante e progressiva, permanecendo afebril durante toda a internação hospitalar.

DISCUSSÃO

As úlceras vulvares são diagnósticos desafiadores devido à diversidade clínica e morfológica. Identificar com precisão a morfologia primária é clinicamente relevante, pois pode reduzir significativamente as possibilidades diagnósticas¹³. Essa identificação precisa, no entanto, é geralmente dificultada por alterações secundárias e pela presença frequente de mais de uma doença¹⁴.

O diagnóstico de UL pode ser estabelecido diante da presença dos cinco critérios maiores e um dos critérios menores (Tabela 1)¹⁵. As características da lesão dessa paciente associadas ao quadro clínico apresentado foram compatíveis com UL. Diagnósticos diferenciais foram descartados com exames complementares, como sorologias e provas imunológicas.

Tabela 1. Critérios diagnósticos de úlcera de Lipschütz (Farhi, 2009).

Critérios maiores	
1.	Primeiro episódio de ulceração genital aguda
2.	Idade menor que 20 anos
3.	Ausência de contato sexual nos últimos 3 meses
4.	Ausência de imunodeficiência
5.	Curso agudo da úlcera genital (início abrupto e resolução sem cicatrizes dentro de 6 semanas)
Critérios menores	
1.	Uma ou várias úlceras profundas, bem delimitadas e dolorosas, com centro necrótico e/ou fibrinoso
2.	Padrão "kissing" bilateral (uma distribuição vulvar semelhante a um espelho)

A biópsia, no caso da UL, geralmente apresenta-se com achados histológicos inespecíficos, como demonstrados no anatomopatológico realizado. Contudo, pode ser útil para descartar outras patologias genitais¹⁶. Assim, o diagnóstico foi estabelecido ao se associar a história clínica aos resultados negativos de sorologias e à resolução da lesão após exérese cirúrgica^{11,16}.



Figura 3. Lesão em cicatrização, 18º dia de evolução.

O suporte hospitalar é unicamente sintomático, com analgésicos tópicos, cicatrizantes e reepitelizantes, além de analgesia local. Em casos de lesões amplas, a utilização de corticoides orais parece acelerar a recuperação das lesões¹⁶. Nesse caso, além do tratamento sintomático, foi administrada antibioticoterapia endovenosa, antifúngico e antissepsia local como tratamento empírico inicial. Além da terapia medicamentosa, foi necessária abordagem cirúrgica com debridamento das lesões. Em bom estado geral e com regressão da lesão, a paciente recebeu alta hospitalar, retornando 18 dias após o início dos primeiros sintomas para reavaliação (Figura 3).

O fato de a UL acometer pré-adolescentes e adolescentes jovens sem contato sexual prévio, e comumente apresentar resolução espontânea em até duas semanas, faz com que muitas vezes tais pacientes não busquem atendimento ginecológico, ou que, ao fazê-lo, sejam erroneamente diagnosticadas devido ao desconhecimento da doença¹⁶.

CONCLUSÃO

A maioria das úlceras vulvares são dolorosas e desencadeiam considerável ansiedade e sofrimento emocional para a paciente. A história e o exame físico fornecem pistas importantes para a causa de uma úlcera vulvar, sendo os exames complementares importantes para o afastamento de diagnósticos diferenciais.

Independente da idade, mulheres sem história de atividade sexual devem ser rastreadas da mesma forma que as sexualmente ativas devido à preocupação de possível relato impreciso da paciente, má compreensão de fatores de risco e abuso sexual.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Sehgal VN, Pandhi D, Khurana A. Nonspecific genital ulcers. *Clin Dermatology*. 2014; 32:259–274.
2. Delgado-García S, Palacios-Marqués A, Martínez-Escoriza JC, Martín-Bayón TA. Acute genital ulcers. *BMJ Case Rep* 2014.
3. Vieira-Baptista P, Lima-Silva J, Beires J, Martinez-de-Oliveira J. Lipschütz ulcers: should we rethink this? An analysis of 33 cases. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2016;198: 149–52.
4. Ghigliotti G, Cinotti E, Parodi A. Usefulness of dermoscopy for the diagnosis of epidermal cyst: the 'pore' sign. *Clin Exp Dermatol*. 2014; 39(5): 649-650.
5. Mun JH, Park SM, Kim TW, Kim BS, Ko HC, Kim MB. Importance of keen observation for the diagnosis of epidermal cysts: dermoscopy can be a useful adjuvant tool. *J Am Acad Dermatol*. 2014; 71(4): e138-e140.
6. Lacarrubba F, Pellacani G, Verzi AE, Pippione M, Micali G. Extragenital lichen sclerosus: clinical, dermoscopic, confocal microscopy and histologic correlations. *J Am Acad Dermatol*. 2015; 72(1)(suppl): S50-S52.
7. Barrett MM, Sangüeza M, Werner B, Kutzner H, Carlson JA. Lymphocytic arteritis in Epstein-Barr virus vulvar ulceration (Lipschütz disease): a report of 7 cases. *Am J Dermatopathol* 2015; 37: 691–698.

8. Archel EB, Goikoetxea MR, Elizalde ER, Rementería XB, Gómez LG, Lizarraga AI. Lipschütz ulcer in a 17-month-old girl: a rare manifestation of Epstein–Barr primoinfection. *Eur J Pediatr* (2013) 172: 1121–1123.
9. Huppert JS. Lipschütz ulcers: evaluation and management of acute genital ulcers in women. *Dermatol Ther* 2010; 23: 533–540.
10. Mourinha V, Costa S, Urzal C, Guerreiro F. Lipschütz ulcers: uncommon diagnosis of vulvar ulcerations. *BMJ Case Rep* 2016: 1-2.
11. García RR, et al. Tratamiento quirúrgico de una úlcera vulvar aguda de Lipschütz. *Progresos de Obstetricia y Ginecología*. 2015; 58(7): 316-318.
12. Wolters V, Hoogslag I, Wout JV, Boers K. Lipschütz Ulcers. A Rare Diagnosis in Women With Vulvar Ulceration. *Obstetrics & Gynecology*. 2017; 0(0): 1-3.
13. Black MM, Ambros-Rudolph C, Edwards L, et al. *Obstetric and gynecologic dermatology*. 3rd edition. Elsevier Limited; 2008.
14. Stewart KMA. A Clinical Approach to Vulvar Ulcers. *Obstet Gynecol Clin N Am*. 2017; 44: 445–451.
15. Farhi D, Wendling J, Molinari E, Raynal J, Carcelain G, Morand P, et al. Non-sexually related acute genital ulcers in 13 pubertal girls: a clinical and microbiological study. *Arch Dermatol* 2009; 145(1): 38–45.
16. Rubio CP, Baquedano ML, Gil AE, Lapresta MM. Úlcera genital aguda en paciente adolescente / Acute genital ulcer in an adolescent patient. *Rev Chil Obstet Ginecol*. 2012; 77(6): 450-452.