



Case Report / Olgu Sunumu

Angina Bullosa Hemorrhagica Characterized by Painless Hemorrhagic Bulla Formation in the Oral Mucosa: Case Report

Oral Mukozada Ağrısız Hemorajik Bül Oluşumu ile Karakterize Anjina Bülloza Hemorajika: Olgu Sunumu

Ensar ERDOĞAN 

Abstract

Angina bullosa hemorrhagica (ABH) is a painless, self-limiting benign lesion characterized by blood-filled blisters that suddenly appear in the oral mucosa, independent of systemic or hemostatic dysfunction. The most common place for lesions is the soft palate. The etiopathogenesis of this benign, subepithelial oral mucosa pathology remains unknown, but it is thought to be multifactorial. However, ABH may often develop due to trauma to the oral mucosa.

This article emphasizes the need to raise awareness about recognizing the characteristics of this benign lesion and thus to pay attention to the differential diagnosis of other bullous diseases of the oral mucosa.

Keywords: bullous lesion, oral mucosa, angina bullosa hemorrhagica, benign

Özet

Anjina bülloza hemorajika (ABH), sistemik veya hemostatik işlev bozukluğundan bağımsız oral mukozada aniden ortaya çıkan içi kan dolu büllerle karakterize, ağrısız, kendi kendini sınırlayan benign lezyon olarak tanımlanmaktadır. Lezyonun en sık görüldüğü yer yumuşak damaktır. Bu benign, subepitelyal oral mukoza patolojisinin etyopatogenezi hala bilinmezliğini korumakta ancak multifaktöriyel olduğu düşünülmektedir. Bununla birlikte sıklıkla oral mukozanın travmasına bağlı ABH gelişebilmektedir.

Bu yazıda, bu benign lezyonun özelliklerinin tanınması konusunda farkındalık oluşturmak ve böylece oral mukozanın diğer büllöz hastalıkları açısından ayırıcı tanıda dikkat edilmesi gerektiği vurgulanmaktadır.

Anahtar Kelimeler: büllöz lezyon, oral mukoza, anjina bülloza hemorajika, benign

Geliş tarihi / Received: 08.10.2024 Kabul tarihi / Accepted: 01.12.2024

¹ Adres Bilgisi: Köse İlçe Devlet Hastanesi

Address for Correspondence / Yazışma Adresi: Ensar ERDOĞAN. Adres Bilgisi: Köse İlçe Devlet Hastanesi (Yeni Mahalle, Aydın Doğan Caddesi, Hilal Sokak, No:2 KÖSE / GÜMÜŞHANE)

E-posta: dr.ensarerdogan@hotmail.com Tel: +90 553 483 3635

Erdoğan E. *Angina Bullosa Hemorrhagica Characterized by Painless Hemorrhagic Bulla Formation in the Oral Mucosa: Case Report.*

TJFMPC, 2025; 19 (1):116-119

DOI: 10.21763/tjfmprc.1561800

Turkish Journal of Family Medicine and Primary Care © 2024 by Aile Hekimliği Akademisi Derneği is licensed under CC BY-NC-ND 4.0

Giriş

Anjina bülloza hemorajika (ABH), sistemik veya hemostatik işlev bozukluğundan bağımsız oral mukozada aniden ortaya çıkan içi kan dolu büllerle karakterize, kendi kendini sınırlayan benign lezyon olarak tanımlanmaktadır.^(1,2) Lezyonun en sık görüldüğü yer yumuşak damak daha sonra yanak mukozası ve dildir. Ancak nadiren de olsa diş eti, sert damak, labial mukoza ve özofagusta da görülebilmektedir.^(2,3) ABH sıklıkla orta ve ileri yaştaki bireylerde her iki cinsiyette de eşit görülmekte olup nadiren gençlerde ve çocuklarda da görülebilmektedir.⁽¹⁻³⁾ ABH'nin etyopatogenezinin henüz tam olarak aydınlatılmamış olmasıyla birlikte literatürde en yaygın kabul gören hipotez olarak karşımıza özellikle bireylerin gıda alımı sırasında oral mukozanın lokal travmasının gerçekleşmiş olması çıkmaktadır.^(2,4)

ABH'nin oral kavite ile ilgilenen spesifik tıp branşlarına başvuran hastaların %0,05'inde mevcut olduğu düşünülmekte ancak gerçek prevalans ve insidansına dair veri bulunmamaktadır.⁽⁵⁾ ABH az bilinmesine rağmen diyabet, hipertansiyon veya inhale steroidler gibi altta yatan durumlarla olası ilişkisi nedeniyle klinisyenler tarafından bilinmesi gerekmektedir.^(1,4) ABH nadir görülmesi, iyi prognozlu olması ve kendiliğinden iz bırakmadan iyileşmesi nedeniyle vakaların çoğunda herhangi bir tedavi gerekmemektedir.^(2,3) Bununla birlikte literatürde hematoma nedeniyle hava yolu obstrüksiyonu vakaları bildirilmiştir bundan dolayı olası bir obstrüksiyonu önlemek için yumuşak damak hematmaları kesilmeli ve boşaltılmalıdır.^(3,6)

Olgu Sunumu

Yirmi bir yaşında üniversite öğrencisi erkek hasta; dilinin sağ alt tarafında aniden ortaya çıkan, ağrısız, içi kan dolu kabarcık şikâyeti ile aile hekimi polikliniğine başvurdu. Şikâyetinin birkaç yıldır olduğunu ve yılda 2-3 kez ortaya çıktığını belirtti. Genellikle aşırı tuzlu veya baharatlı gıda tüketimi esnasında saniyeler içerisinde hafif bir sızı ile ortaya çıkıp büyüdüğünü ve belli bir boyuta ulaştıktan sonra sızı olmadığını aktardı. Daha önce benzer durumlar olduğunda birkaç saat içerisinde içi kan dolu kabarcığın herhangi bir ilaç ve/veya gargara kullanmadan kendiliğinden patlayarak söndüğünü ve birkaç gün içerisinde de iz bırakmadan kaybolduğunu söyledi. Hastanın özgeçmişinde travma, inhale steroid kullanımı, sürekli ilaç kullanımı, diyabet, hipertansiyon, kanama bozukluğu ve kronik hastalık öyküsü yoktu. Soygeçmişinde abisinde de benzer lezyon öyküsü vardı. (Hasta ile tekrar görüşüldüğünde abisinde de benzer lezyonların geliştiği bilgisini verdi). Yapılan klinik muayenede dilin sağ ventral yüzünde 4-5 milimetre çaplı, Nikolsky bulgusu negatif, gergin, içi kan dolu bül izlendi (Resim 1). Vital bulguları; ateş 36,6 °C, nabız 79/dk, kan basıncı 120/65 mmHg, oksijen saturasyonu 97 olarak ölçüldü. Hemogram, biyokimya (böbrek/karaciğer/tiroid fonksiyon testleri, elektrolitler), eritrosit sedimentasyon hızı (ESH) ve koagülasyon testleri (PT, aPTT, INR) normaldi. Lezyonun gıda tüketimi sonrasında ağrısız bir şekilde oluşması, içi kan dolu büllöz kabarcıklar şeklindeki görünümü, tekrarlayıcı olması, kendiliğinden iyileşmesi, diğer hastalıklardan klinik ve laboratuvar olarak ayırt edilmesi ile söz konusu olguya dermatoloji uzmanına danışılarak anjina bülloza hemorajika tanısı konuldu.

İçi kan dolu kabarcığın benign olması ve herhangi bir tedavi verilmeden kısa sürede kendiliğinden patlayıp iz bırakmadan iyileşmesi nedeniyle hastaya spesifik bir tedavi verilmedi. Hastalığın kendisi ve seyri hakkında hasta bilgilendirildi. Semptomların gerilemesi ve sekonder enfeksiyonların önlenmesi amacıyla % 0,12 - 0,20 konsantrasyonlarda klorheksidin gibi topikal antiseptiklerin kullanımı önerildi.^(5,7)

Hasta kontrole geldiğinde lezyonun herhangi bir ilaç kullanmadan o gün içerisinde kendiliğinden patlayarak söndüğünü, hafif sızı kaldığı için topikal klorheksidinle gargara yaparak sızısını azalttığını söyledi. Bu süreç içerisinde lezyona bağlı herhangi bir komplikasyon gelişmedi.



Resim 1. Dilin sağ ventral yüzünde hemorajik bül

*Resim paylaşımı için hastadan onam alınmıştır.

Tartışma

1933 yılında travmatik oral hemofliktenoz olarak adlandırılan bu durum, 1967’de Badham tarafından ilk kez ABH olarak tanımlandı. (8) Ancak Kirtschig ve Happle tarafından lezyonların ağrısız olması nedeniyle ABH teriminin yanıtıcı olduğu öne sürüldü ve onun yerine “stomatopomfoliks hemorajika” ismi önerildi. (9) Bu benign, subepitelyal oral mukoza patolojisinin etyopatogenezi hala bilinmezliğini korumakta ancak multifaktöriyel olduğu düşünülmektedir. (4) Bununla birlikte duyarlı hastalarda sıklıkla sert yiyeceklerin veya sıcak içeceklerin tüketilmesi esnasında veya hemen sonrasında, bazı diş tedavileri ile entübasyon gibi tıbbi girişimler sırasında ortaya çıkmasından dolayı ABH’nin etyolojisinin oral mukozanın travmasından kaynaklandığını düşündürmektedir. (3, 5) Literatür incelendiğinde ABH ile inhale steroidler ve diabetes mellitus, hipertansiyon gibi altta yatan bazı sistemik durumlar arasında olası bir ilişki belirtilmektedir. (1, 8) Grinspan ve arkadaşları tarafından ABH vakalarının yaklaşık %45’inde diabetes mellitus, hiperglisemi ve/veya ailede diyabet öyküsü olduğu bildirilmiştir. (10)

ABH’de büllerin konumu dikkat edilmesi gereken önemli bir husustur. ABH’nin en sık yerleşim gösterdiği yerler arasında yumuşak damak, dilin yan kenarı, yanak mukozası, ağız tabanı ve orofarinks bulunmaktadır. (2) Yumuşak damak ve faringeal bölgede, muhtemelen büllerin kontrolsüz genişlemesini engelleyecek sert destek yapılarının olmaması nedeniyle hava yolu obstrüksiyonuna neden olabilmekte dolayısıyla boğulma hissi oluşturmakta ve boğulma riskini artırmaktadır. Boğulma hissinden dolayı bu duruma “anjina” denmektedir. (2)

ABH’nin ayırıcı tanısında lösemi, von Willebrand hastalığı, trombositopeni gibi sistemik hematolojik patolojiler ve pemfigus vulgaris, büllöz pemfigoid, oral amiloidoz, lineer IgA dermatoz, epidermolizis büllöza, dermatitis herpetiformis, büllöz liken planus gibi vezikülobülloz hastalıklar düşünülmelidir. (1, 8) Kapsamlı bir anamnez ve muayenenin yanı sıra tam kan sayımı ve pıhtılaşma panelini içeren bir kan tahlili yapılarak bu hastalıkları dışlamak gerekmektedir.

ABH’nin teşhisi esasen klinikdir ancak biyopsi yapılan vakalar da olmaktadır. Mikroskopik incelemede kanla dolu bir subepitelyal bül ve altta genellikle lamina propria ile sınırlı ve spesifik olmayan mononükleer inflamatuvar hücre görülmektedir. (8)

ABH’nin tanılanması için son zamanlarda Ordoini ve arkadaşları tarafından oluşturulan tanı kriterleri önerilmektedir (Tablo 1). ABH’nin pozitif tanısı için, olgunun tanımlanmış dokuz kriterden her iki ana kritere (kriter I ve II) ek olarak en az dört kriteri daha karşılaması gerekmektedir. (7)

Tablo 1. ABH tanısı için klinik kriterler

Ana Kriterler	
I	Oral mukozada kanama öyküsü olan klinik olarak belirgin hemorajik bül veya erozyon
II	Sadece oral veya orofaringeal lokalizasyon
Ek Kriterler	
III	Damak lokalizasyonu
IV	Tetikleyici olay veya destekleyici faktör (gıda alımı)
V	Tekrarlayan lezyonlar
VI	Birkaç gün içinde iz bırakmadan olumlu gelişme
VII	Ağrısız lezyon, karıncalanma veya yanma hissi
VIII	Normal trombosit sayısı ve koagülasyon profili
IX	Negatif direkt immunofloresan

*ABH: Anjina Büllöza Hemorajika

Sunuma konu olan olguda hastanın kliniği tipikti, pıhtılaşma profili de dahil olmak üzere kan testi sonuçları normaldi. Tıbbi öyküsünde inhale steroid kullanımı, diyabet ve hipertansiyon gibi kronik hastalıkları yoktu. Ordoini ve arkadaşları tarafından ortaya konulan tanı kriterlerine dayanılarak değerlendirildiğinde her iki ana kriter ve buna ek beş kriteri de sağlıyordu.

ABH olguları sıklıkla orta ve ileri yaşta görüldüğü belirtilse de bu olgu genç yetişkin döneminde idi ve bilinen herhangi bir kronik hastalığı yoktu. (1-3) Literatür incelendiğinde hava yolu obstrüksiyonuna neden olan olgular da mevcut, bu olguda ise lezyon hava yolu obstrüksiyonuna neden olabilecek lokalizasyonda ve büyüklükte değildi. (3, 6)

Ayrıca literatürde COVID-19’un da ABH’ye neden olabileceği belirtilmekte ancak bu olguda COVID-19 enfeksiyon öyküsü bulunmamaktadır. (4)

Sonuç

Bu olgu sunumunda anjina bülloza hemorajikanın klinisyenler tarafından bilinmesi gereken, anamnez ve fizik muayene ile genellikle teşhis edilebilen benign, kendi kendini sınırlayan, nadir fakat tanınabilir bir lezyon olduğu vurgulanmak istendi. Klinisyenler bu durumun farkında olmalı ve hastalara iyi prognoz konusunda güven vermelidir.

Hasta Rıza Beyanı

Mevcut olgu için hastadan onam alındı.

Mali Destek Ve Sponsorluk

Herhangi bir kurum ve kuruluştan maddi destek alınmamıştır.

Çıkar Çatışmaları

Herhangi bir çıkar çatışması yoktur.

Referanslar

1. Kano Y. Angina Bullosa Hemorrhagica. JMA J. 2023;6(1):92-4.
2. Okobi OE, Evbayekha EO, Ebili U, Ogbonna UO, Ogundiran F, Ebong IL. Angina Bullosa Hemorrhagica: A Rare and Interesting Presentation. Cureus. 2022;14(3):e23335.
3. Onda T, Hayashi K, Katakura A, Takano M. Spontaneous oral hematoma diagnosed as angina bullosa hemorrhagica. Cleve Clin J Med. 2022;89(11):615-6.
4. Goel S, Gupta S, Bhalla K, Maheshwari I. Angina Bullosa Hemorrhagica in Five Covid-19-Positive Patients: A Concomitance or an Important Oral Manifestation. Indian Dermatol Online J. 2023;14(1):88-90.
5. Alberdi-Navarro J, Garcia-Garcia A, Cardona-Tortajada F, Gainza-Cirauqui ML, Aguirre-Urizar JM. Angina bullosa hemorrhagica, an uncommon oral disorder. Report of 4 cases. J Clin Exp Dent. 2020;12(5):e509-e13.
6. Prabhakar Shashikala R. Angina bullosa haemorrhagica rare cause of upper airway obstruction. Emerg Med J. 2015;32(3):238.
7. Ordioni U, Hadj Said M, Thiery G, Campana F, Catherine JH, Lan R. Angina bullosa haemorrhagica: a systematic review and proposal for diagnostic criteria. Int J Oral Maxillofac Surg. 2019;48(1):28-39.
8. Rai S, Kaur M, Goel S. Angina bullosa hemorrhagica: report of two cases. Indian J Dermatol. 2012;57(6):503.
9. Narang T, Kanwar AJ. Hemorrhagic blisters in the mouth. Indian J Dermatol Venereol Leprol. 2008;74(4):431.
10. Grinspan D, Abulafia J, Lanfranchi H. Angina bullosa hemorrhagica. Int J Dermatol. 1999;38(7):525-8.