

## LICHEN PLAN KERATOTIC PUNCTAT ACRAL: O VARIANTĂ RARĂ ȘI NEOBIȘNUITĂ DE LICHEN PLAN

## PUNCTATE KERATOTIC ACRAL LICHEN PLANUS: AN UNUSUAL AND RARE VARIANT OF LICHEN PLANUS

OANA MIRELA TIUCĂ<sup>\*,\*\*</sup>, RADU STAN<sup>\*\*</sup>, BIANCA LAZĂR<sup>\*\*\*</sup>, OVIDIU S. COTOI<sup>\*\*\*,\*\*\*\*</sup>,  
SILVIU-HORIA MORARIU<sup>\*,\*\*</sup>

### Rezumat

**Introducere:** Lichenul plan acral (ALP) este o variantă rară a lichenului plan (LP), care poate fi uneori dificil de diagnosticat, datorită caracteristicilor clinice și dermatoscopice atipice și rezistenței terapeutice. Raportăm cazul unei paciente diagnosticate cu lichen plan keratotic punctat.

**Prezentarea cazului:** Pacientă în vârstă de 49 de ani se adresează Clinicii de Dermatovenerologie din cadrul Spitalului Clinic Județean Mureș pentru apariția de 3 luni a unor papule multiple, intens pruriginoase, plate și de culoare gălbuie, cu tendință de confluaire în plăci hiperkeratotice, situate bilateral pe palme și tălpi. Pe baza examenului clinic, dermatoscopic și histopatologic s-a stabilit diagnosticul de lichen plan keratotic punctat. Tratamentul combinat constând în corticoterapie sistemică, antihistaminice anti-H1, heparină gel topic 500 UI/g, de două ori pe zi și fototerapie UVB cu bandă îngustă a dus la

### Summary

**Introduction:** Acral lichen planus (ALP) is an uncommon variant of LP, that can sometimes be difficult to diagnose, due to atypical clinical and dermoscopy features and resistance to different therapeutical means. We report the case of a female patient diagnosed with punctate keratotic lichen planus.

**Case report:** A 49-year-old female patient presented to the Dermatology Clinic of Mures Clinical County Hospital for multiple, severely pruritic, flat and yellowish-coloured papules confined in hyperkeratotic plaques located bilaterally on the palms and soles, in evolution for three months. Clinical, dermoscopic, and histopathological examinations further established the diagnosis of punctate keratotic lichen planus. Combined treatment with systemic corticotherapy and anti-H1 antihistamines, topical heparine gel 500 UI/g, twice a day and narrow-band UVB phototherapy was started with significant improvement at two months follow-up.

\* Disciplina Dermatologie, Universitatea de Medicină, Farmacie, Științe și Tehnologie "George Emil Palade" din Târgu-Mureș, România.

Dermatology Department, "George Emil Palade" University of Medicine, Pharmacy, Science, and Technology "George Emil Palade" of Târgu-Mureș, Romania.

\*\* Secția Clinică Dermatovenerologie, Spitalul Clinic Județean Mureș, Târgu-Mureș, România.

Dermatology Clinic, Mureș Clinical County Hospital, Târgu-Mureș, Romania.

\*\*\* Serviciul Clinic de Anatomie Patologică, Spitalul Clinic Județean Mureș, Târgu-Mureș, România.

Pathology Department, Mureș Clinical County Hospital, Târgu-Mureș, Romania.

\*\*\*\* Disciplina Fiziopatologie, Universitatea de Medicină, Farmacie, Științe și Tehnologie "George Emil Palade" din Târgu-Mureș, România.

Pathophysiology Department, "George Emil Palade" University of Medicine, Pharmacy, Science, and Technology "George Emil Palade" of Târgu-Mureș, Romania.

*ameliorări semnificative ale leziunilor cutanate în următoarele două luni .*

**Concluzii :** ALP keratotic punctat este o variantă rară și neobișnuită de LP. Pacienții cu LP keratotic punctat ar putea beneficia de tratament cu heparină topică .

**Cuvinte cheie :** lichen plan , heparină, lichen plan keratotic.

**Conclusions:** Keratotic punctate ALP is a very rare and uncommon variant of LP. Patients with punctate keratotic LP might benefit from treatment with topical heparine.

**Keywords:** lichen planus, heparine, keratotic lichen planus.

Intrat în redacție: 10.12.2023

Acceptat: 8.01.2024

Received: 10.12.2023

Accepted: 8.01.2024

## Introducere

Lichenul plan (LP) este o patologie cutanată inflamatorie, heterogenă din punct de vedere morfologic, ce poate afecta tegumentul, mucoasele și unghiile pacienților. Având mecanisme etiopatogenice complexe și incomplet elucidate, LP se poate datora și poate duce la alterarea calității vieții pacienților. Lichenul plan acral (ALP) este o formă rară de LP, care poate fi în anumite cazuri dificil de diagnosticat, datorită aspectelor clinice și dermatoscopice atipice și rezistenței la diferite opțiuni terapeutice. În prezenta lucrare, prezentăm cazul unei paciente diagnosticate cu o formă rară de lichen plan acral, și anume lichenul plan keratotic punctat acral.

## Raport de caz

Prezentăm cazul unei paciente în vârstă de 49 de ani, care s-a adresat Clinicii de Dermatovenerologie din cadrul Spitalului Clinic Județean Mureș prezentând o erupție eritemato-scuamoasă în evoluție de 3 luni. Anamnezic, pacienta a încercat multiple tratamente la domiciliu, fără rezultat. Examenul clinic identifică papule multiple, intens pruriginoase, plate și de culoare gălbuie, cu tendință de confluație în plăci hiperkeratotice localizate bilateral la nivelul palmelor și plantelor (Figura 1). Unele leziuni prezentau o depresiune punctată centrală (Figura 2). Intensitatea pruritului a fost apreciată pe scala analog vizuală la 8/10. Leziuni similare, violacee, de dimensiuni mici au fost identificate pe suprafața volară a antebrațelor. Nu s-au decelat leziuni la nivelul mucoaselor sau unghiilor.

Investigațiile de laborator au identificat leucociturie (75 Leu/ $\mu$ l) fără alte modificări asociate. Examinarea dermatoscopică pune în evidență arii eritematoase de fond, pe suprafața

## Introduction

Lichen planus (LP) is an inflammatory disorder, with a heterogenous morphological pattern and that can affect patients' skin, mucosas, and nails. With a complex and incompletely elucidated etiopathogenesis, LP may be due to and can lead to impaired quality of life for affected subjects. Acral LP (ALP) is an uncommon variant of LP, that can sometimes be difficult to diagnose, due to atypical clinical and dermoscopy features and resistance to different therapeutical means. Herein, we report the case of a female patient diagnosed with an even rarer variant of ALP, namely punctate keratotic lichen planus.

## Case report

We report the case of a 49-year-old female patient presenting to the Dermatology Clinic of Mures Clinical County Hospital with a papulo-squamous rash in evolution for 3 months. Various home remedies were previously used, with no result. Clinical examination revealed multiple, severely pruritic, flat, and yellowish-coloured papules confined in hyperkeratotic plaques located bilaterally on the palms and soles (as seen in Figure 1). Some of the lesions presented with a central, punctate crateriform depression (Figure 2). Itch severity was appreciated on the visual analogue scale at 8/10. Similar, scarce small-sized lesions were noted on the volar surface of the forearms. No mucous or nail lesions were identified.

Laboratory investigations identified leucocyturia (75 Leu/ $\mu$ l) with no other associated comorbidities. Dermoscopy examination identified an erythematous background, with yellow



*Figura 1. Aspectul clinic la diagnostic.*

*Figure 1. Clinical picture at diagnosis.*



*Figura 2. Depresiuni punctate, localizate central la nivelul leziunilor.*

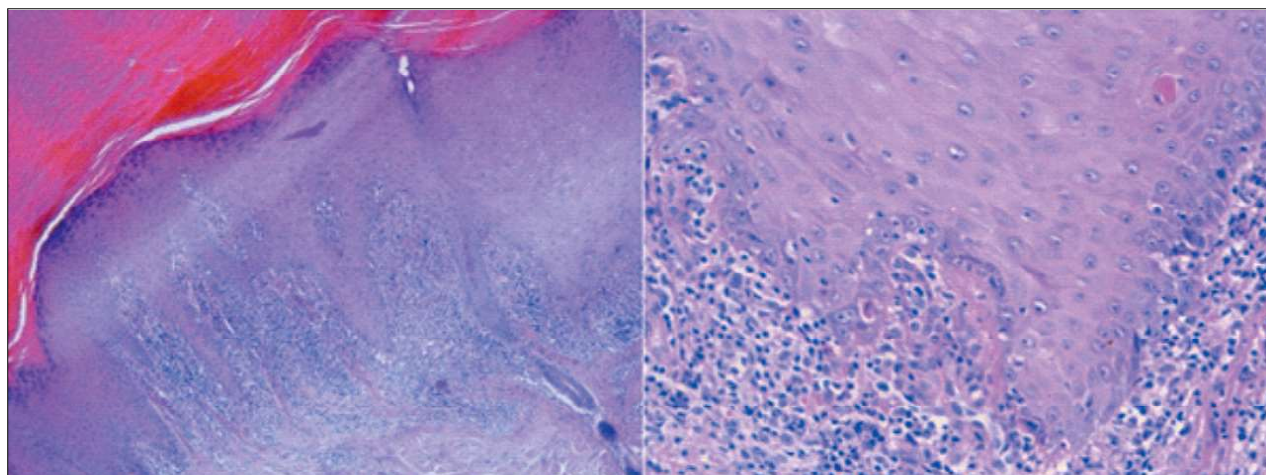
*Figure 2. Central, punctate crateriform depressions of the lesions.*

căroră se descriu puncte galbene și scuame groase. Nu au fost identificate striurile lui Wickham ( Figura 3). S-a efectuat biopsie punch cu diametrul de 6 mm dintr-o leziune localizată la nivel palmar drept, cu examen histopatologic ulterior. În colorație hematoxilină-eozină (Figura 4) se identifică hiperkeratoză ortokeratotică, hipergranuloză și hiperplazie epidermică cu aspect de dinți de fierăstrău. În dermul superficial se pune în evidență un infiltrat limfocitar dispus în bandă, alcătuit din macrofage, limfocite

dots and thick scales. No Wickham striae were seen (Figure 3). A 6 mm diameter punch biopsy was performed from one of the lesions located on the right palm with consequent histopathological examination. Hematoxylin-eosin stain examination (Figure 4) identified orthokeratotic hyperkeratosis, hypergranulosis, and epidermal hyperplasia with a saw-tooth appearance. A band-like lymphocytic infiltrate with macrophages, lymphocytes, and rare plasmacytes was seen in



Figura 3. Aspect dermatoscopic. Eritem, puncte gălbui și scuame. Striurile lui Wickham sunt absente.  
Figure 3. Dermoscopy image. Erythema, yellow dots and scales. No identified Wickham striae.



**a** **b**  
Figura 4. Aspect histopatologic (5X HE, 10X). Hiperkeratoză ortokeratotică, hipergranuloză, infiltrat limfocitar dispus în bandă.

Figure 4. Histopathological examination (5X HE, 10X). Orthokeratotic hyperkeratosis, hypergranulosis, band-like lymphocytic infiltrate.

și rare plasmocite, permițând ca atare stabilirea diagnosticului de lichen plan keratotic punctat acral.

Se inițiază tratament constând în corticoterapie sistemică (Prednison 5 mg, b.i.d 0,5 mg/kg timp de zece zile cu scădere ulterioară a dozelor), antihistaminice anti-H1 (Clorfeniramină 4 mg, o dată pe zi, seara, timp de 10 zile),

the superficial dermis, further establishing the diagnosis of punctate keratotic lichen planus.

Combined treatment with systemic corticotherapy (oral Prednisone, b.i.d 0.5 mg/kg for ten days with consequent tapering) and anti-H1 antihistamines (Chlorpheniramine 4 mg, once daily, at night), topical heparine gel 500 UI/g b.i.d, and narrow-band (nb) UVB phototherapy

topic heparină gel 500 UI/g b.i.d , și fototerapie UVB cu bandă îngustă (nb) timp de 4 săptămâni. Evoluția pacientei a fost favorabilă, examinarea la două luni de la inițierea tratamentului decelând regresia importantă a leziunilor palmo-plantare cu diminuarea semnificativă a pruritului (VAS=2), așa cum se poate observa în Figura 5.

was started. Two-months check-up identified a marked regression of the palmoplantar lesions with a strongly alleviated itch (VAS=2), as seen in Figure 5.



Figura 5. Aspect clinic la controlul de două luni.  
Figure 5. Clinical picture at two months follow-up.

## Discuții

ALP este o formă puțin frecventă de lichen plan. Actualmente, sunt descrise cinci tipuri de ALP: eczematos, keratotic punctat, ulcerat , lichenoid și psoriaziform, cel din urmă fiind cel mai frecvent [1]. Conform unui studiu publicat de Sanchez-Perez et al. [2], ALP poate fi întâlnit în până la 26 % din cazurile LP și este definit prin particularități epidemiologice, clinice, dermatoscopice, histologice și terapeutice.

Spre deosebire de alte forme de LP, ALP afectează în principal pacienții de sex masculin, de vârstă mijlocie, între decada a treia și a cincea. Cazul prezentat nu respectă aceste date epidemiologice, fiind vorba de o pacientă de sex feminin. Papulele violacee, considerate potognomonice pentru LP, nu sunt în general întâlnite în ALP. În plus, în această formă de LP, leziunile afectează în principal marginile laterale ale degetelor și mâinii și respectă vârfulurile degetelor [3,4]. Cu toate acestea, în cazul nostru, leziunile au fost localizate în principal între pliul palmar tenar și cel distal.

## Discussions

Acral, palmoplantar lichen planus is an uncommon entity within the lichen planus spectrum. Five types of acral lichen planus were described, namely eczematous, punctate keratotic, ulcerated, lichenoid, and psoriasiform, the latter being the most common [1]. According to Sanchez-Perez et al. [2], ALP may be encountered in up to 26% of LP cases and seems to be defined by distinctive epidemiological, clinical, dermatoscopic, histological, and therapeutical features.

Unlike other forms of LP, ALP mainly affects middle-aged males, between the third and fifth decade. Our patient does not fit the epidemiological data available for ALP. Typical polygonal violaceous papules, regarded as pathognomonic lesions of LP, are generally not seen in ALP. Moreover, in this particular form, the lesions mainly affect the lateral margins of the fingers and hand and seem to spare the fingertips [3,4]. However, in our case, the lesions were primarily located between the thenar palmar and the distal palmar crease.

Histologic, ALP prezintă un strat lucid bine reprezentat, caracteristică histologică care va determina ulterior din punct de vedere clinic absența striurilor lui Wickham [5,6]. Ca și în cazul nostru, absența striurilor lui Wickham poate fi datorată aditional și imposibilității de observare a stratului granulos îngroșat localizat pe fondul creșterii grosimii stratului cornos.

În până la o treime din cazuri, ALP se poate generaliza, în medie între una și patru luni de la debut. Leziunile generalizate, secundar apărute, prezintă trăsăturile patognomonice ale LP [5]. Ca urmare, se impune monitorizarea pacienților cu ALP.

Diagnosticul diferențial trebuie să ia în considerare lichenul nitidus, psoriazisul, calusurile, eczemele hiperkeratozice, granulomul inelar și sifilisul secundar. În cazul nostru, pruritul sever, investigațiile de laborator cu serologie negativă, respectiv examenul histopatologic au fost esențiale pentru orientarea diagnosticului pozitiv.

Corticoterapia locală și sistemică reprezintă prima linie de tratament. Alte opțiuni terapeutice ce și-au dovedit utilitatea sunt acitretinul [7], metotrexatul [8], ciclosporina, fototerapia nb-UVB și PUVA terapia. Yasar et. al [9] a raportat succesul terapeutic a 12 administrări subcutanate a câte 3 mg enoxaparină în ALP. În ceea ce privește utilizarea enoxaparinei în LP, aceasta a fost descrisă pentru prima dată de Hodak et. al [10] la 10 pacienți cu LP generalizat. Enoxaparină, o heparină cu greutate moleculară mică, inhibă activitatea heparanazei eliberată de limfocitele T. Ca urmare, matricea extracelulară este diminuată, la fel și producerea de citokine proinflamatorii, în special TNF- $\alpha$  [10], datorită structurii dizaharidice a enoxaparinei.

În cazul de față, ne-am propus să observăm dacă aplicarea topică de heparină se poate însoți de efecte terapeutice similare în ALP cu cele ale enoxaparinei administrate sistemic. Ca atare, pacienta a beneficiat de aplicarea topică a gelului cu heparină, cu diminuarea consecutivă a pruritului și aplatizarea semnificativă a leziunilor. Evaluarea la două luni decelează un răspuns bun sub tratamentul instituit (corticosteroizi administrați sistemic și heparină gel topic), iar pacienta este în continuare monitorizată în cadrul clinicii. Din datele pe care le deținem, lucrarea de față reprezintă prima descriere a utilității heparinei topic în tratamentul LP.

Histologically, ALP presents with a thick stratum lucidum, which further reflects clinically in the absence of Wickham's striae [5,6]. As in our case, this may be due to impossible observation of the localized granular layer thickening due to the thickness of the horny layer.

Up to one third of ALP may become generalized, between one and four months from onset. Generalized, secondary lesions usually exhibit typical LP features, unlike the palmo-plantar localization [5]. A proper follow-up of these patients proves therefore to be mandatory.

Differential diagnoses should take into account lichen nitidus, psoriasis, calluses, hyperkeratotic eczema, granuloma annulare, and secondary syphilis. In our case, the severe pruritus presented by the patient, negative serological investigations, and histopathological examinations were essential clues for the positive diagnosis.

Topical and systemic corticotherapy are the mainstay of treatment. Various agents, such as acitretin [7], methotrexate [8], cyclosporine. nb-UVB phototherapy, and psoralen and ultraviolet A therapy (PUVA) proved to be effective. Moreover, Yasar et. al [9] reported the successful treatment of ALP with 12 courses of subcutaneous injections of 3 mg enoxaparine. As for enoxaparine use in LP, it was first successfully administered by Hodak et. al [10] to 10 patients with generalized LP. Enoxaparine, a low-molecular-weight heparin, inhibits the activity of the heparanase released by the T cell lymphocytes. As such, the extracellular matrix is inhibited, as well as the production of pro-inflammatory cytokines, especially TNF- $\alpha$  [10], due to the disaccharide structure of the enoxaparine.

In our case, we hypothesized that topical heparin may exhibit the same therapeutical effects on ALP lesions as systemic enoxaparine. Therefore, the patient was started, as previously mentioned, on topical heparine gel with subsequent diminishing in pruritus intensity and an obvious flattening of the lesions. Two-month follow-up identified the definite positive effect of the treatment of choice (systemic corticosteroids and topical heparine), and the patient is further carefully monitored in our clinic. To the best of our knowledge, this is the first case reporting the usefulness of topical heparine gel in treating LP.

## Concluzii

ALP keratotic punctat este o formă rară de LP. Caracterizat clinic și dermatoscopic prin atipia leziunilor, prezintă o evoluție îndelungată, posibilă generalizare și rezistență la tratament. Ca atare, pacienții cu LP keratotic punctat ar trebui să fie monitorizați cu atenție. Heparina aplicată topic ar putea reprezenta o opțiune terapeutică pentru astfel de cazuri.

Declarație de etică: *Drepturile pacienților au fost respectate în conformitate cu Declarația de la Helsinki. Pacientul și-a dat consimțământul pentru publicarea cazului, cu respectarea regulamentului GDPR. Prezentul caz nu a mai fost publicat și/sau trimis spre publicare în alt jurnal.*

## Conclusions

Keratotic punctate ALP is a very rare and uncommon variant of LP. Defined by clinically and dermoscopically atypical lesions, it can present with a prolonged course of disease, possible generalization, and resistance to treatment. Patients with punctate keratotic LP should be carefully monitored, while topical heparine gel might be an useful therapeutical option for such cases.

Ethics statement: *Patients' rights were respected according to the Declaration of Helsinki. The patient gave her consent for the publication of her case, by obiding the GDPR cases. The reported case was not previosuly published, nor is it under consideration for publication in another journal.*

## Bibliografie / Bibliography

1. Sinha, Surabhi, Rashmi Sarkar, and VijayKumar Garg. 2018. "Palmoplantar Lesions of Lichen Planus." *Indian Journal of Dermatology* 63 (1): 57.
2. Sánchez-Pérez J, Rios Buceta L, Fraga J, et. al. Lichen planus with lesions on the palms and/or soles: prevalence and clinicopathological study of 36 patients: palmoplantar lesions in LP. *British Journal of Dermatology*. 2000;142(2):310-314.
3. Solak B, Kara RO, Kosem M. Palmoplantar lichen planus successfully treated with acitretin: Figure 1. *BMJ Case Reports*. Published online September 7, 2015:bcr2015211115.
4. Burillo-Martínez S, Tous-Romero F, Rodríguez-Peralto JL, et. al. Palmoplantar Lichen Planus: The Spectrum of Clinical Manifestations in a Single Patient. *Actas Dermo-Sifiliográficas (English Edition)*. 2017;108(8):790-792.
5. Kim MJ, Choi M, Na SY, et. al. Two cases of palmoplantar lichen planus with various clinical features. *The Journal of Dermatology*. 2010;37(11):985-989.
6. Madke B, Gutte R, Doshi B, et. al. Hyperkeratotic palmoplantar lichen planus in a child. *Indian J Dermatol*. 2013;58(5):405.
7. Vazirnia A, Cohen PR. Acitretin for the management of generalized cutaneous lichen planus. *Dermatol Online J*. 2014;20(9):13030/qt2m36z4jm.
8. Turan H, Baskan EB, Tunali S, et. al. Methotrexate for the treatment of generalized lichen planus. *Journal of the American Academy of Dermatology*. 2009;60(1):164-166.
9. Yasar S, Serdar Z, Goktay F, et al. The successful treatment of palmoplantar hyperkeratotic lichen planus with enoxaparin. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2011;77(1):64.
10. Hodak E, Yosipovitch G, David M, et al. Low-dose low-molecular-weight heparin (enoxaparin) is beneficial in lichen planus: a preliminary report. *Journal of the American Academy of Dermatology*. 1998;38(4):564-568.

Conflict de interese  
NEDECLARATE

Conflict of interest  
NONE DECLARED

Adresa de corespondență: Radu Stan

Spitalul Clinic Județean Mureș, Clinica Dermatovenerologie, str. Gheorghe Doja, nr. 12  
e-mail: stanradu0805@gmail.com

Correspondance address: Radu Stan

Mureș Clinical County Hospital, Dermatology Clinic, Gheorghe Doja street, no. 12  
email: stanradu0805@gmail.com