

LIMFANGIOMUL CIRCUMSCRIS - prezentare de caz

LYMPHANGIOMA CIRCUMSCRIPTUM - a case report

MIHAELA BALABAN*, RALUCA POPESCU*,**, MIHAELA ANTOHE*, ANDREEA CĂLINESCU*,
CĂTĂLIN MIHAI POPESCU*,**

Rezumat

Limfangioamele reprezintă proliferații limfatice benigne, cauzate de hiperplazia sistemului limfatic, care se pot extinde la nivel cutanat, subcutanat sau al organelor interne. Dintre acestea, limfangioma circumscris este cea mai întâlnită formă. Poate fi primar sau secundar.

Prezentăm cazul unei paciente de 13 ani, care s-a prezentat pentru o erupție localizată la nivel fesier și intrafesier stâng, în evoluție de 11 ani, alcătuită din vezicule gălbui, diseminate și confluate sub forma unei plăci, la care examenul histopatologic a confirmat suspiciunea clinică de limfangioma circumscris. Având în vedere caracterul asimptomatic al leziunilor și refuzul tratamentului chirurgical, leziunile au fost doar monitorizate clinic. După 18 luni, aspectul acestora a rămas nemodificat, fără vreo complicație.

Cuvinte cheie: malformații limfatice, limfangioma circumscris.

Intrat în redacție: 20.12.2015

Acceptat: 28.01.2016

Summary

Lymphangiomas are benign lymphatic proliferations, caused by hyperplasia of the lymphatic system, which can extend to cutaneous and subcutaneous level or to internal organs. Among these, lymphangioma circumscriptum is the most common form. It can be primary or secondary.

We present the case of a 13-year-old female patient, who presented with an eruption over the left buttock and over the proximal part of the left posterior thigh, just under the left buttock, evolving for 11 years, consisting of yellow vesicles, disseminated or grouped into plaques. The histologic examination confirmed the clinical suspicion of lymphangioma circumscriptum. Considering the asymptomatic lesions and the refusal of the surgical treatment, the lesions were only clinically monitored. After 18 months, the aspect was unchanged, without any complications.

Key-words: lymphatic malformations, lymphangioma circumscriptum.

Received: 20.12.2015

Accepted: 28.01.2016

Introducere

Limfangioamele reprezintă proliferații limfatice benigne, cauzate de hiperplazia sistemului limfatic, care se pot extinde la nivel cutanat, subcutanat sau al organelor interne [1] [2].

Clasificarea curentă în funcție de profunzimea și dimensiunea vaselor limfatice afectate,

Introduction

Lymphangiomas are benign lymphatic proliferations, caused by hyperplasia of the lymphatic system, that can extend to cutaneous and subcutaneous level or to internal organs [1] [2].

The current classification, based on the depth and the dimension of the affected lymphatic

* Spitalul Clinic Colentina, Secția Dermatologie I, București, România.

Colentina Clinical Hospital, 1st Department of Dermatology, Bucharest, Romania.

** Universitatea de Medicină și Farmacie „Carol Davila”, București, România.

Carol Davila University of Medicine and Pharmacy, Bucharest, Romania.



Fig. 1. Vezicule gălbui, translucide, bine delimitate și o placă eritematoasă de 2.5 cm, având în suprafață vezicule roz-gălbui și eritematoase, grupate, acoperite pe alocuri de scuamă fină
Fig. 1. Yellow, translucent, well-circumscribed vesicles and an erythematous plaque, measuring about 2.5 cm, with grouped pink-yellowish and erythematous vesicles on its surface, from point to point covered by fine scale

împarte limfangioamele în superficiale și profunde [3]. Grupul superficial cuprinde malformații limfatice microchistice, denumite limfangioame circumscrise, iar cel profund este alcătuit din malformații limfatice macrochistice: limfangioamele cavernoase și higroamele chistice [1] [4]. Unii autori consideră higromul chistic o variantă anevrismală a limfangiomului cavernos [3].

Malformațiile limfatice pot apărea la orice vârstă, dar mai ales la naștere (50%) sau în primii 5 ani de viață. În cazul copiilor, acestea reprezintă 25% din totalitatea tumorilor benigne vasculare [5]. Au fost raportate cazuri cu debut spontan la adolescenți și adulți [3].

Limfangiomul circumscris reprezintă cea mai întâlnită formă de limfangiom cutanat [3]. În 1970, acesta a fost clasificat în clasic și localizat. Forma clasică, caracterizată prin debut la naștere sau la scurt timp după aceasta, a fost descrisă cel mai frecvent la nivelul extremităților proximale, dimensiunea sa depășește adesea 1cm², fără să sufere modificări hiperkeratozice, verucoase. Forma localizată poate avea orice localizare și apărea la orice vârstă, având dimensiune redusă (sub 1cm²). În niciuna dintre cele două forme nu există legături între rețeaua limfatică normală și cea anormală profundă [6].

Prezentarea cazului

Prezentăm cazul unei paciente de 13 ani, care avea o erupție localizată fesier și intrafesier stâng, alcătuită din vezicule gălbui, asimptomatică. Leziunile debutaseră în urmă cu 11 ani, inițial în zona subfesieră stângă, cu apariția unor vezicule gălbui, bine delimitate, grupate sub forma unei plăci de 2,5 cm. Ulterior, au apărut noi vezicule

vessels, divides lymphangiomas into superficial and deep [3]. The superficial group includes microcystic lymphatic malformations, called lymphangiomas circumscriptum, whereas the deep one is composed of macrocystic lymphatic malformations: cavernous lymphangiomas and cystic hygromas [1] [4]. Some authors consider cystic hygroma as being an aneurysmal type of cavernous lymphangioma [3].

Lymphatic malformations can arise at any age, especially at birth (50%) or in the first 5 years of life. In children, they represent 25% of all benign vascular tumors [5]. Spontaneous onset cases in adolescents and adults have been reported [3].

Lymphangioma circumscriptum is the most common form of cutaneous lymphangioma [3]. In 1970, it was divided into classic and localized. The classic form, characterized by the appearance at birth or soon after birth, was more frequently described over the proximal limbs, the size usually exceeds 1cm², without any hyperkeratotic and verrucous changes. The localized form can have any location and can appear at any age, with a reduced size (less than 1cm²). There is no connection between the normal and the abnormal deep lymphatic network in any of the two forms [6].

Case presentation

We present the case of a 13-year-old female patient, who presented with an eruption over the left buttock and over the proximal part of the left posterior thigh, just under the left buttock, consisting of yellow asymptomatic vesicles. The lesions existed for 11 years and initially appeared over the proximal part of the left posterior thigh,

diseminate pe fesă. Pacienta nu avea antecedente personale patologice sau familiale semnificative și nu suferise intervenții chirurgicale. Examinarea cutanată a evidențiat o erupție localizată la nivelul feței laterale a treimii inferioare a fesei stângi, alcătuită din vezicule gălbui, translucide, bine delimitate, cu dimensiune de 2 mm, iar la nivel subfiesier stâng, o placă eritematoasă de 2.5 cm, având în suprafață vezicule roz-gălbui și eritematoase, grupate, acoperite pe alocuri de scuamă fină. Pe parcursul celor 11 ani de evoluție, leziunile s-au menținut asimptomatice, cu excepția ruperii unor vezicule posttraumatic, dar care nu a modificat calitatea vieții.

În urma examenului local s-a stabilit diagnosticul de limfangiom circumscris și s-a prelevat o punch biopsie de la nivel subfiesier stâng. Examenul histopatologic a confirmat diagnosticul de limfangiom circumscris, evidențiind multiple spații chistice la nivelul dermului papilar, delimitate de endoteliu, cu conținut limfatic, câteva eozinofile și eritrocite, cu epiderm subțiat pe alocuri, alternând cu acantoză și hiperkeratoză, însoțite de infiltrat inflamator limfocitar în derm. Având în vedere caracterul asimptomatic al leziunilor și refuzul tratamentului chirurgical de către părinți, s-a decis doar supravegherea leziunilor. După 18 luni, aspectul acestora a rămas nemodificat, fără vreo complicație.

Discuții

Limfangiomul circumscris poate fi primar (congenital) sau secundar (dobândit). Forma primară debutează la naștere sau în copilărie și se datorează unor malformații limfatice, în timp ce forma secundară apare la orice vârstă, în contextul unei obstrucții cronice sau distrugerii vaselor limfatice (după intervenții chirurgicale, radioterapie, infecții ca tuberculoză și erizipel, boli cu transmitere sexuală, traumatisme, malignități, keloide, boală Crohn) [7] [8] [9].

În acest caz, având în vedere debutul și lipsa antecedentelor personale semnificative, limfangiomul circumscris a fost primar.

Unii autori consideră limfangiomul circumscris dobândit și limfangiectaziile ca fiind una și aceeași afecțiune [8], în timp ce alții le deosebesc în funcție de dimensiune, considerând că limfangiectaziile sunt simple dilatații limfatice, în

as well circumscribed, yellow vesicles, grouped into a 2,5 cm plaque. Subsequently, new disseminated vesicles appeared on the left buttock. The patient did not have any significant personal or familial antecedents and she did not undergo any surgical interventions. The cutaneous examination revealed an eruption over the lateral inferior third of the left buttock, consisting of yellow, translucent, well-circumscribed, 2 mm vesicles, while under the left buttock, there was an erythematous plaque, measuring about 2.5 cm, having grouped pink-yellowish and erythematous vesicles on its surface, from point to point covered by fine scale. During the 11 years of evolution, the lesions remained asymptomatic, except for the post-traumatic rupture of some of the vesicles, without any impairment of the quality of life.

Considering the clinical examinations, a clinical diagnosis of lymphangioma circumscriptum was made and a punch biopsy from a lesion located under the left buttock was performed. The histopathological examination confirmed the diagnosis of lymphangioma circumscriptum, revealing multiple cystic spaces in the papillary dermis, lined by an endothelium, with lymphatic content, a few eosinophils and erythrocytes, with a thin epidermis, alternating with acanthosis and hyperkeratosis, associated with a dermal inflammatory lymphocytic infiltrate. Considering the asymptomatic lesions and the refusal of the surgical treatment by the parents, the lesions were only clinically monitored. After 18 months, the aspect was unchanged, without any complications.

Discussion

Lymphangioma circumscriptum can be primary (congenital) or secondary (acquired). The primary form begins at birth or in childhood and is caused by lymphatic malformations, whereas the secondary form appears at any age, due to chronic lymphatic obstruction or to destruction of the lymphatic vessels (after surgical interventions, radiotherapy, sexually transmitted diseases, traumatism, malignancy, keloid, Crohn disease and infections such as tuberculosis, erysipelas) [7] [8] [9].

In this case, lymphangioma circumscriptum was primary, taking into account the onset and the lack of significant family history.

timp ce limfangioamele corespund unor dilatații de dimensiuni tumorale, extinse [10] [11].

Fiziopatologia limfangiomului circumscris presupune existența la nivel subcutanat a unor "cisterne" limfatice anormale, dezvoltate în viața intrauterină dintr-un sac limfatic embrionar primitiv, lipsit de conexiuni cu vasele limfatice normale [3] [12]. Aceste cisterne comunică, prin intermediul unor canale, cu vase limfatice ectopice superficiale, iar drenajul în aceste vase anormale conduce la distensia lor progresivă, prin presiunea crescută de la nivelul cisternelor. Cisternele sunt mărginite de fibre musculare, a căror contracție ritmică va determina protruzia canalelor dilatate, care apar la suprafața pielii sub formă de vezicule [3] [5] [12]. Astfel, limfangiomul circumscris este întreținut de cisternele din profunzime și apare ca o consecință a fluxului retrograd [10] [13]. De asemenea, este predispus la recurență, în cazul în care intervenția chirurgicală interesează doar porțiunea superficială.

Clinic, limfangiomul circumscris apare sub forma unor vezicule translucide, cu conținut fluid clar sau serosanghinolent, bine delimitate, discrete, uneori grupate în buchet sau sub formă de plăci, cu aspect de "ouă de broască". Veziculele pot varia ca dimensiune (2-4 mm) și pot conflua, formând bule. Apariția hemoragiilor intraveziculare determină modificări de culoare, acestea devenind roz, roșii, roșii-albăstrui sau negre. Mecanismul prin care sângele ajunge la nivelul veziculelor rămâne necunoscut [3] [10] [14].

În ceea ce privește localizarea, cel mai frecvent au fost raportate cazuri de limfangiom circumscris la nivelul extremităților proximale, trunchiului, cavității orale (limbă și buze), axilei, pleoapei și conjunctivei, pliurilor inghinale, mai rar la nivelul organelor genitale externe (vulvă, penis, scrot), dar poate fi întâlnit în orice regiune a corpului [1] [3] [15] [16] [17] [18]. Leziunile dobândite apar cel mai frecvent la nivel genital (mai ales vulvar) și sunt cauzate de obstrucția îndelungată a sistemului limfatic pelvin. Au fost raportate cazuri de limfangiom circumscris dobândit, localizat la nivel vulvar (secundar tuberculozei, după intervenții chirurgicale la nivel pelvin, postradioterapie, boală Crohn) și la nivelul scrotului (postvasectomie) [18] [19] [20].

Some authors consider acquired lymphangioma circumscriptum and lymphangiectasis as being the same disorder [8], while others differentiate them depending on their size, considering that lymphangiectasis are simple lymphatic dilations, while lymphangiomas represent large, tumoral-sized dilations [10] [11].

The pathophysiology of lymphangioma circumscriptum is based on abnormal lymphatic subcutaneous "cisterns", developed in the intrauterine life from a primitive embryonic lymph sac, without any connection to the normal lymphatic vessels [3] [12].

These cisterns communicate through channels with superficial ectopic lymphatic vessels and because of the high pressure in the cisterns, the drainage into these abnormal vessels determines their progressive distension. The cisterns are lined by muscular fibers, whose rhythmic contraction will cause the protrusion of the dilated channels, which appear on the skin as vesicles [3] [5] [12]. Thereby, lymphangioma circumscriptum is nourished by deep cisterns and appears as a consequence of the retrograde flowing [10] [13]. Also, if the surgical intervention involves only the superficial portion, recurrences may develop.

Clinically, lymphangioma circumscriptum is characterized by translucent vesicles, filled with clear or serohemorrhagic fluid, well-circumscribed, discrete, sometimes grouped in clusters or in plaques, resembling "frog spawn". The vesicles can have variable size (2-4 mm) and can conflate, forming bullae. Intravesicular hemorrhage modifies their color, by becoming pink, red, bluish-red or black. The mechanism by which the blood gets into the vesicles remains unknown [3] [10] [14].

Regarding the localization, lymphangioma circumscriptum frequently involves the proximal extremities, trunk, oral cavity (tongue and lips), axilla, eyelid and conjunctiva, inguinal folds, rarely the external genital organs (vulva, penis, scrotum), although possible anywhere on the body [1] [3] [15] [16] [17] [18]. Acquired lesions appear most frequently on the genital area (especially the vulva) and are caused by prolonged obstruction of the lymphatic pelvic system. Cases of acquired lymphangioma circumscriptum over the vulva (secondary to tuberculosis, pelvic surgical procedures, radio-

Leziunile primare vulvare apar mai rar decât cele dobândite [21].

În cele mai multe cazuri, leziunile sunt asimptomatice și rareori însoțite de prurit, durere, senzație de arsură. Spontan sau posttraumatic, veziculele se pot rupe, evacuând fluid clar sau hematic [5] [22]. De asemenea, există riscul de suprainfecție cu *Staphylococcus aureus* [3]. Limfangiomul circumcrist poate asocia limfedem la nivelul membrelor inferioare, în contextul existenței unor anomalii limfatice extinse [10]. Foarte rar, limfangiomul circumcrist este însoțit de malignități. Astfel, au fost raportate cazuri de limfangiosarcom (pe zonă de limfangiom circumcrist cu iradiere în antecedente), tumoră Dabska și carcinom spinocelular [23] [24] [25].

Deși în cazul pacientei noastre evoluția a fost îndelungată (peste 10 ani), nu s-au înregistrat complicații importante, cu excepția ruperii posttraumatice a unor vezicule.

Uneori, limfangiomul poate mima diferite afecțiuni cutanate. Astfel, o placă eritemato-verucoasă, cu vezicule și papulo-noduli de culoare roz în suprafață, unii acoperiți de cruste gălbui, a fost inițial diagnosticată ca herpes zoster [26]. Uneori, examenul clinic evidențiază plăci hiperkeratozice, verucoase cu aspect de veruci vulgare sau de condiloame acuminat. [27] [28]. Veziculele hemoragice și ombilicate pot fi similare leziunilor din molluscum contagiosum [29]. Papulele verucoase, violacee, cu tendință la confluaire au fost interpretate ca hemangiom sau nev epidermic [30]. Suprapunerea dermatitei de contact peste limfangiomul circumcrist a împiedicat inițial diagnosticul corect [31]. De asemenea, diagnosticul diferențial se poate face și cu herpes simplex, metastaze cutanate (carcinoma teleangiectoides), larva migrans, dermatită herpetiformă [3] [32] [33].

Examinarea dermatoscopică evidențiază un pattern lacunar. Veziculele cu conținut fluid clar se vizualizează ca lacune gălbui, delimitate de septuri pale, în timp ce prezența sângelui la nivelul leziunilor apare sub forma unor lacune de culoare roz-gălbui, albastrui sau roșu închis, imposibil de diferențiat de hemangiom [3] [34].

Veziculele corespund histopatologic unor dilatații limfatice anormale superficiale, localizate în dermul papilar, dar care, uneori, se

therapy, Crohn disease) and over the scrotum (following vasectomy) have been reported [18] [20]. The primary lesions appear less often than the acquired ones [21].

In the majority of cases, the lesions are asymptomatic and rarely associated with pruritus, pain, burning sensation. Spontaneously or posttraumatic, the vesicle may break, evacuating clear or hemorrhagic fluid [5] [22]. Also, *Staphylococcus aureus* can be responsible for the infection of the existent lesions [3]. If extensive lymphatic anomalies are present, lymphedema involving inferior extremities can be associated with lymphangioma circumscriptum [10]. Very rarely, this disorder is accompanied by malignancies. Thus, various cases of lymphangiosarcoma (arising on lymphangioma circumscriptum previously treated with radiotherapy), Dabska tumor and spinocellular carcinoma have been reported [23] [24] [25].

Even if in the case of our patient the evolution was prolonged (more than 10 years), no important complications have been noticed, except for the posttraumatic rupture of some vesicles.

Sometimes, lymphangioma mimics different cutaneous entities. A verrucous, erythematous plaque, with vesicles and pink papules and nodules on its surface, some of them covered with yellowish crusts, was initially diagnosed as herpes zoster [26]. Occasionally, the clinical examination reveals hyperkeratotic, warty plaques, with the appearance of warts or condylomata acuminata [27] [28]. Hemorrhagic and umbilicated vesicles resemble molluscum contagiosum [29]. Verrucous, violaceous papules, with tendency to confluence were misdiagnosed as hemangioma or epidermal nevus [30]. Contact dermatitis superimposed over lymphangioma circumscriptum initially restrained the correct diagnosis [31]. Furthermore, herpes simplex, cutaneous metastasis (carcinoma teleangiectoides), larva migrans and herpetiform dermatitis should be considered as other differential diagnoses [3] [32] [33].

Dermoscopic examination reveals a lacunar pattern. The vesicles with clear fluid are visualized as yellow lacunae, demarcated by pale septa, while blood into the lesions gives the appearance of pink-yellowish, bluish or dark-red

pot extinde în dermul reticular sau subcutanat, alcătuite dintr-un strat endotelial subțire, cu un conținut proteic eozinofil și ocazional un conținut hematic, celule gigante multinucleare și histiocite [3] [5] [35]. Epidermul prezintă acantoză și hiperkeratoză, iar dermul conține un infiltrat limfocitar. Aceste vase superficiale comunică prin intermediul unor canale limfatice profunde cu cisterne limfatice de calibru crescut, cu perete gros, localizate subcutanat sau în țesuturile profunde. Peretele cisternelor conține țesut muscular neted [3] [5] [35].

Examinarea prin rezonanță magnetică nucleară și prin limfangiografie este utilă doar când se suspectează leziuni profunde [5] [36].

Tratamentul este rezervat cazurilor în care apar complicații (scurgerea continuă a lichidului timp îndelungat, hemoragii, infecții recurente, leziuni dureroase, pruriginoase) și din considerente cosmetice [3] [37] [38]. Tratamentul de elecție este excizia chirurgicală completă atât a leziunilor cutanate superficiale, cât și a cisternelor din profunzime, pentru a preveni recurențele. Excizia chirurgicală contribuie la îndepărtarea a 75% din limfangioame, cu un procent suplimentar de 12% în cazul unei intervenții ulterioare [3] [39].

Alte modalități de tratament încercate sunt electrocauterizarea, scleroterapia (cu soluție salină hipertonică, OK-432 și bleomicină), crioterapia, CO2 laser, pulsed dye laser [3] [5] [40].

În cazul pacientei noastre, luând în considerare lipsa simptomatologiei și refuzul exciziei chirurgicale, s-a decis exclusiv monitorizarea clinică. După 18 luni, aspectul leziunilor a rămas nemodificat și nu s-au înregistrat complicații.

Concluzii

Am ilustrat un caz de limfangioma circumscris primar, cu debut în copilărie, la o pacientă în vârstă de 13 ani, cu polimorfism lezional, reprezentat de vezicule, papule, placă, scuame și care nu a înregistrat complicații, în ciuda evoluției prelungite.

lacunae, impossible to differentiate from hemangioma [3] [34].

Histologically, the vesicles correspond to superficial abnormal lymphatic dilations, localized in the papillary dermis, which sometimes extend into the reticular dermis or subcutaneously, consisting of thin endothelial layer, with eosinophilic proteinaceous material and occasionally hematic content, giant multinucleated cells and histiocytes [3] [5] [35].

The epidermis presents acanthosis and hyperkeratosis and a lymphocytic infiltrate is observed in the dermis. These superficial vessels communicate through deep lymphatic channels with lymphatic cisterns distributed subcutaneously or in the deep tissues, that have larger caliber and a thick wall. The wall of the cisterns consists of smooth muscular tissue [3] [5] [35].

Nuclear magnetic resonance and lymphangiography examination are useful only when deep lesions are suspected [5] [36].

The treatment is taken into consideration in complicated cases (continued and prolonged leakage of the fluid, hemorrhage, recurrent infections, painful and pruritic lesions) and for cosmetic reasons [3] [] [38]. The treatment of choice is the complete surgical excision of superficial cutaneous lesions, as well as the deep cisterns, in order to prevent recurrences. The surgical excision removes 75% of lymphangiomas, with an additional percentage of 12%, in case of a new intervention [3] [39].

Other treatment options include cauterization, sclerotherapy (with hypertonic saline solution, OK-432 and bleomycin), cryotherapy, CO2 laser and pulsed dye laser [3] [5] [40].

In the case of our patient, considering the asymptomatic lesions and the refusal of the surgical treatment, the lesions were only clinically monitored. After 18 months, the aspect was unchanged, without any complications.

Conclusions

We presented the case of a primary lymphangioma circumscriptum, with childhood onset, in a 13-year-old female patient, characterized by lesional polymorphism, consisting of vesicles, papules, plaque, scales and without any complications, even if the evolution was prolonged.

Bibliografie/ Bibliography

1. Enjolras O. Vascular malformations. In: *Dermatology Bologna*, Jean [ed]. 3rd ed. Elsevier, London, 2014; 1722-1724.
2. Irvine AD, Sweeney L, Corbett JR. Lymphangioma circumscriptum associated with paravesical cystic retroperitoneal lymphangioma. *Br J Dermatol* 1996;134:1135–1137.
3. Patel, G. A. and Schwartz, R. A. [2009], Cutaneous lymphangioma circumscriptum: frog spawn on the skin. *International Journal of Dermatology*, 48: 1290–1295.
4. Boon ML, Vikkula M. Vascular malformations. In: *Fitzpatrick's Dermatology in General Medicine*. Goldsmith AL (ED). 8th Ed. McGraw-Hill Education, 2012; 2086-2088.
5. Schwartz RA, Fernandez G. Lymphangioma. *eMedicine Dermatology* [journal series online]. 2015. URL <http://emedicine.medscape.com/article/1086806-overview> [23.12.2015].
6. Peachey RD, Lim CC, Whimster IW. Lymphangioma of skin. A review of 65 cases. *Br J Dermatol*.1970;83:519–27.
7. North J, White K, White C, Solomon A. Acquired, verrucous, gluteal lymphangioma in the setting of Crohn's disease. *Journal of the American Academy of Dermatology*. 2011;64[5]:e90–e91.
8. Amouri, Meriem; Masmoudi, Abderrahmen; Boudaya, Sonia; Amouri, Ali; Ali, Issam Ben; Bouassida, Samir; et al.[2007]. Acquired lymphangioma circumscriptum of the vulva.*Dermatology Online Journal*, 13[4]. Retrieved from: <http://escholarship.org/uc/item/87r7t9tc>.
9. Russell B. Lymphangioma circumscriptum and keloids. *Br J Dermatol* 1951; 63: 158159.
10. Mortimer PS. Disorders of Lymphatic Vessels. In: *Textbook of Dermatology*, Rook/Wilkinson/Ebling. Sixth Ed. Blackwell Science, 1998; 2277-2296.
11. Verma SB. Lymphangiectasias of the skin: victims of confusing nomenclature. *Clin Exp Dermatol*. 2009 Jul. 34[5]:566-9.
12. Whimster IW. The pathology of lymphangioma circumscriptum. *Br J Dermatol* 1976; 94: 473–486.
13. Martinez-Menchon T, Mahiques-Santos L, Febrer-Bosch I, et al. Lymphangioma circumscriptum: an example of Whimster's hypothesis. *Pediatr Dermatol* 2004; 21:652–654.
14. Mordehai J, Kurzbart E, Shinhar D, et al. Lymphangioma circumscriptum. *Pediatr Surg Int* 1998; 13: 208–210.
15. Askar I, Kilinc N, Aytekin S. A giant lymphangioma circumscriptum on the anterior axilla: A case report. *Can J Plast Surg*. 2003 Fall;11[3]:157-9.
16. Goble RR, Frangoulis MA. Lymphangioma circumscriptum of the eyelids and Conjunctiva. *British Journal of Ophthalmology*, 1990,74, 574-575.
17. Bansal A, Sethuraman G. Lymphangioma circumscriptum of the tongue. *Indian Pediatr* 2006 Jul; 43[7]: 650-1.
18. Ramesh M. Bhat, Celia S. Saldanha, Srinath M. Kambil, and S. Dandakeri. Cutaneous lymphangiectasia of the vulva secondary to tuberculosis. *Indian J Sex Transm Dis*. 2012 Jan-Jun; 33[1]: 35-37.
19. Mu XC, Tran TA, Dupree M, Carlson JA. Acquired vulvar lymphangioma mimicking genital warts. A case report and review of literature. *J Cutan Pathol*. 1999;26:150-4.
20. Dilip Kumar Pal, Manju Banerjee, Dhrubajyoti Moulik, Biplab Kumar Biswas, Manoj Kumar Choudhury. Lymphangioma circumscriptum of the scrotum following vasectomy. *Indian J Urol*. 2010 Apr-Jun; 26[2]: 294-295.
21. Derya Uçmak, Sema Aytekin, Bilal Sula, Zeynep Meltem Akkurt, Gül Türkçü, and Elif Ağaçayak, "Acquired Vulvar Lymphangioma Circumscriptum," *Case Reports in Dermatological Medicine*, vol. 2013, Article ID 967890, 3 pages, 2013.
22. Aggarwal K, Gupta S, Jain VK, Marwah N. Congenital Lymphangioma Circumscriptum of the Vulva. *Indian Pediatr* 2009; 46: 428-429.
23. King D, Duffy D, Hirose F et al. Lymphangiosarcoma arising from lymphangioma circumscriptum. *Arch Dermatol*. 1979;115:969-72.
24. Emanuel PO, Lin R, Silver L et al. Dabska tumor arising in lymphangioma circumscriptum. *J Cutan Pathol*. 2008;35:65-9.
25. Wilson GR, Cox NH, McLean NR et al. Squamous cell carcinoma arising within congenital lymphangioma circumscriptum. *Br J Dermatol*. 1993;129:337-9.
26. Patel GA, Siperstein RD, Ragi G, Schwartz RA. Zosteriform lymphangioma circumscriptum. *Acta Dermatovenerol Alp Pannonica Adriat*. 2009 Dec;18[4]:179-82.
27. Erkilic, S., Koçer, N.E, Mutaç, M. [2006], Giant lymphangioma circumscriptum mimicking wart in a 13-year-old girl. *The Journal of Dermatology*, 33: 501-503.
28. Sah SP, Yadav R, Rani S. Lymphangioma circumscriptum of the vulva mimicking genital wart: a case report and review of Literature. *J Obstet Gynaecol Res*, 27 [2001], pp. 293-296.

29. Kokcam I. Lymphangioma circumscriptum of the penis: a case report. Acta Dermatovenerol Alp Pannonica Adriat. 2007 Jun;16[2]:81-2.
30. Terushkin, Vitaly; Marmon, Shoshana; Fischer, Max; Patel, Rishi R; & Sanchez, Miguel R. [2012]. Verrucous lymphangioma circumscriptum. Dermatology Online Journal, 18[12]. Retrieved from: <http://escholarship.org/uc/item/0cn1r4v7>.
31. Mendiratta V, Sarkar R, Sharma RC. Lymphangioma circumscriptum masquerading as irritant contact dermatitis. J Dermatol. 1999 Jul;26[7]:474-5.
32. Fatahzadeh M, Schwartz RA. Human herpes simplex virus infections: epidemiology, pathogenesis, symptomatology, diagnosis, and management. J Am Acad Dermatol. 2007;57:737-63; quiz 764-6.
33. Thappa M D, Garg B R, Ratnakar C. Lymphangioma circumscriptum masquerading as larva migrans. Indian J Dermatol Venereol Leprol [serial online] 1995 [cited 2015 Dec 21];61:2378. Available from: <http://www.ijdv.com/text.asp?1995/61/4/237/4222>.
34. Massa AF, Moreira AI, Menezes N, Osório-Ferreira E, Baptista A. Cutaneous Lymphangioma circumscriptum - dermoscopic features. An Bras Dermatol. 2015;90[2]:262-4.
35. Weedon D. Vascular tumors. In: Weedon D [ed]. Skin Pathology 3rd edn. Churchill Livingstone, London, 2010; 892-893.
36. Osborne, G.E.N., Chinn, R.J.S., Francis, N.D. and Bunker, C.B. [2000], Magnetic Resonance Imaging in the investigation of penile lymphangioma circumscriptum. British Journal of Dermatology, 143: 467-468.
37. Bond J, Basheer MH, Gordon D. Lymphangioma circumscriptum: pitfalls and problems in definitive management. Dermatol Surg 2008; 34: 271-275.
38. Browse NL, Whimster I, Stewart G, et al. Surgical management of 'lymphangioma circumscriptum'. Br J Surg 1986; 73: 585-588.
39. Flanagan BP, Helwig EB. Cutaneous lymphangioma. Arch Dermatol 1977; 113: 24-30.
40. Chakravarti A, Bhargava R. Lymphangioma circumscriptum of the tongue in children: successful treatment using intralesional bleomycin. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2013 Aug;77[8]:1367-9.

Conflict de interese
NEDECLARATE

Conflict of interest
NONE DECLARED

Adresa de corespondență: Mihaela Cernat
E-mail: mihaela.cernat@gmail.com

Correspondance address: Mihaela Cernat
E-mail: mihaela.cernat@gmail.com