

ANGINA BULLOSA HEMORRHAGICA: A CASE REPORT

ANGINA BULLOSA HEMORRÁGICA: REPORTE DE UN CASO

PABLO EMILIO MOLANO VALENCIA¹, SERGIO LUNA OTÁLORA², MAURICIO ANDRÉS VÁSQUEZ VALENCIA³

ABSTRACT. Angina bullosa hemorrhagica (ABH) was first described by Badham in 1967 as a disease characterized by either one single lesion or multiple lesions of sudden appearance, with a color ranging from dark red to purple. It often affects the soft palate, but there are reports of cases in the oral mucosa, the side edge of the tongue, and the gingiva following hygienic therapy. This report presents the case of a patient subjected to crown enlargement surgery to correct type IB altered passive eruption. Two weeks after surgery she had a red painful lesion of sudden appearance in the vestibular gingiva of the upper left and right maxillary, that worsened in a period of four months. A biopsy was taken, with results compatible with ABH. The goal of this article is to report a new case of ABH, its clinical characteristics and differentiation to other hemorrhagic diseases of the oral cavity, as well as its respective management.

Key words: angina bullosa hemorrhagica, blister, oral lesions.

RESUMEN. La angina bullosa hemorrágica (ABH) es una patología definida por Badham en 1967, caracterizada por ser una lesión única o múltiple de aparición repentina; su color puede variar entre el rojo oscuro y el púrpura. La zona más afectada es el paladar blando, aunque se han descrito casos en la mucosa oral, el borde lateral de la lengua y a nivel gingival después de terapia de fase higiénica. Se presenta el caso de una paciente para realizar cirugía de alargamiento coronal para corregir erupción pasiva alterada tipo IB, a las dos semanas del posquirúrgico presenta una lesión de aparición repentina roja y dolorosa en la encía vestibular del maxilar superior derecho e izquierdo, la cual se agrava hacia los cuatro meses de evolución y se decide tomar biopsia, tras lo cual los resultados son compatibles con ABH. El objetivo de este artículo es reportar un nuevo caso de ABH, sus características clínicas y diferenciación con otras enfermedades hemorrágicas de la cavidad oral y su respectivo manejo.

Palabras clave: angina bullosa hemorrágica, ampolla, lesiones orales.

Molano PE, Luna S, Vásquez MA. Angina bullosa hemorrhagica: a case report [Angina bullosa hemorrágica: reporte de un caso]. Rev Fac Odontol Univ Antioq 2017; 28(2): 422-432. DOI: 10.17533/udea.rfo.v28n2a11 URL: <http://dx.doi.org/10.17533/udea.rfo.v28n2a11>

- 1 DMD and Specialist in Periodontics. Universidad del Valle. Adjunct Professor in the Periodontics Class, Dentistry Program, Universidad Santiago de Cali, Colombia. Assistant Professor in the Graduate Program in Periodontics, School of Dentistry, Universidad del Valle, Colombia. Email: pablomol42@hotmail.com
- 2 DMD. Universidad Santiago de Cali. Specialist in Periodontics, School of Dentistry, Universidad del Valle, Colombia.
- 3 DMD. Universidad Autónoma de Manizales. Specialist in Periodontics, School of Dentistry, Universidad del Valle, Colombia.

SUBMITTED: FEBRUARY 9/2016 - ACCEPTED: JULY 19/2016

- 1 Odontólogo y Especialista en Periodoncia. Universidad del Valle. Profesor adjunto en la cátedra de Periodoncia, Programa de Odontología, Universidad Santiago de Cali, Colombia. Profesor auxiliar del Posgrado de Periodoncia, Escuela de Odontología, Universidad del Valle, Colombia. Correo electrónico: pablomol42@hotmail.com
- 2 Odontólogo. Universidad Santiago de Cali. Especialista en Periodoncia, Escuela de Odontología, Universidad del Valle, Colombia.
- 3 Odontólogo. Universidad Autónoma de Manizales. Especialista en Periodoncia, Escuela de Odontología, Universidad del Valle, Colombia.

RECIBIDO: FEBRERO 9/2016 - ACEPTADO: JULIO 19/2016

INTRODUCTION

Angina bullosa hemorrhagica (ABH) was first described by Badham in 1967 as a disease characterized by vesicles or blisters containing blood, which are not attributable to blood dyscrasias, vesiculobullous disorders, or other known causes.^{1,2} In 1992, Scully gave a synonym for ABH, naming it *oral purple* also. Other names to this lesion include benign bullosa hemorrhagic stomatitis and traumatic or recurrent oral hemophiltenosis.³ Clinically, ABH is characterized by a single or multiple lesion, asymptomatic for their most part (but painful in some cases), appearing suddenly,^{3,4} with color ranging from dark red to purple, which can break and expand rapidly in a term of 24 to 48 hours;⁴ however, there are reports of cases lasting more than four months to years.⁵ It may appear as multiple blisters of two to three centimeters in diameter that break spontaneously and heal leaving no scars, although may be recurrent.^{6,7} It has no sex predilection, and the age it most frequently occurs is between 50 and 70 years;³ however, it can occur in younger patients.⁸

The most commonly affected area is the soft palate,³ although the literature has reported cases in other less common areas such as the buccal mucosa, the lateral border of the tongue,³ the anterior pillar of the jaws and the arytenoid cartilages;⁷ in fact, it has also been located in the area of the floor of the mouth and in the pharyngeal and esophageal mucosa;^{2,4} unusual cases have been reported in keratinized mucosa, such as the hard palate.⁹

ABH is not associated with blood disorders or hemorrhagic conditions;^{1,3,4} its pathogenesis remains unknown, and the most important related factor is local tissue trauma,^{1,3,6} caused by the consumption of hot drinks, dental procedures, harm to mucous membranes, or as a result of local anesthesia.² Other conditions, such as diabetes mellitus and inhaled steroids, salbutamol and ipratropium bromide,

INTRODUCCIÓN

La angina bullosa hemorrágica (ABH) fue descrita por Badham en 1967, y está caracterizada por presentar vesículas o ampollas con contenido sanguíneo, las cuales no son atribuibles a discrasias sanguíneas, desórdenes vesículo-bulosos ni otras causas conocidas.^{1,2} En 1992, Scully dio un sinónimo para la ABH, nombrándola también como *púrpura oral*. Otros nombres que ha recibido esta lesión han sido: estomatitis hemorrágica bullosa benigna y hemofiltosis oral traumática o recurrente.³ Clínicamente, la ABH se caracteriza por ser una lesión única o múltiple, generalmente asintomática (aunque en ocasiones llega a ser dolorosa), que aparece repentinamente,^{3,4} cuyo color varía entre el rojo oscuro y el púrpura, la cual puede hacer ruptura y expandirse rápidamente en un término de 24 a 48 horas;⁴ sin embargo, se han encontrado casos que reportan una duración de más de cuatro meses hasta años.⁵ Se pueden presentar múltiples ampollas de dos a tres centímetros de diámetro, con ruptura espontánea y curación sin dejar cicatriz, aunque pueden ser recurrentes.^{6,7} No tiene predilección por sexo, y la edad de mayor frecuencia está entre los 50 y 70 años;³ sin embargo, puede presentarse en pacientes de menor edad.⁸

La zona más afectada es el paladar blando,³ aunque en la literatura se han reportado casos en otras zonas menos frecuentes, como la mucosa bucal, el borde lateral de la lengua,³ el pilar anterior de las fauces y los cartílagos aritenoides;⁷ de hecho, también se ha localizado en la zona del piso de la boca y en la mucosa faríngea y esofágica,^{2,4} y se han reportado casos inusuales en mucosa queratinizada, como el paladar duro.⁹

La ABH no está asociada a desórdenes sanguíneos o hemorrágicos;^{1,3,4} su etiopatología permanece aún sin definir, y el factor relacionado más importante es el trauma local del tejido,^{1,3,6} causado por el consumo de bebidas calientes, procedimientos dentales, maltrato de las mucosas, o como resultado de la anestesia local.² Otras condiciones, como la diabetes mellitus y los esteroides inhalados, el salbutamol y el bromuro de ipratropio

appear in the literature as predisposing factors.³⁻⁷ Although its visual diagnosis does not represent a major problem, it is important for the clinician to differentiate it from other conditions, such as hemorrhagic disease or bullous disorders, that can show characteristics similar to this benign condition.¹

The differential diagnosis is done against other hemorrhagic lesions, since ABH is similar to thrombocytopenia lesions, but blood count and hemostatic function are normal in the former. On the other hand, amylose produces hemorrhagic blisters, with systemic manifestations and tissue amyloid deposition in the skin. Occasionally, lesions by endoscopy procedures can resemble ABH.¹⁰

The treatment seeks to reduce the discomfort and to improve the ulcer's healing after its eruption, as in most cases it tends to heal spontaneously.⁶ In the presence of large, intact blood blisters, an incision is recommended to prevent its extension, thus preventing the obstruction of airways. Its treatment has been defined as symptomatic, using mouthwash and painkillers and avoiding thick foods.⁷ In inhaled steroid users, gargling with water, followed by an application of medicine, have seemed to be a very effective way to prevent ABH onset.⁶ In cases in which ABH affects the soft palate and the blister has ruptured, it is recommended to use antibiotic prophylaxis and antiseptic rinses, such as chlorhexidine digluconate in concentrations of 0.25% or 0.12% to help reduce symptoms and prevent secondary infection. In areas less commonly affected, the clinician should evaluate whether antibiotic use is necessary. Chlorhexidine rinses are recommended for all patients.¹⁰ This article reports a case of ABH which appeared four months after a crown enlargement surgery performed to correct an altered passive eruption in a 21-year-old patient. Clinical characteristics are described as well as their respective management.

aparecen en la literatura como factores predisponentes.³⁻⁷ Aunque su diagnóstico visual no representa un problema mayor, es importante que el clínico sepa diferenciarlo de otras condiciones, como enfermedades hemorrágicas o desórdenes bullosos, que puedan presentar características similares de esta condición benigna.¹

El diagnóstico diferencial se realiza frente a otras lesiones hemorrágicas, dado que la ABH es similar a las lesiones de trombocitopenia, pero en la primera, el recuento sanguíneo y la función hemostática se encuentran normales. Por otra parte, la amilosis produce ampollas hemorrágicas, con manifestaciones sistémicas y deposición tisular amiloidea en la piel. Ocasionalmente, las lesiones por procedimientos de endoscopia pueden parecerse a la ABH.¹⁰

El tratamiento está encaminado a reducir el malestar producido y mejorar la cicatrización de la úlcera después de su disrupción, dado que en la mayoría de las ocasiones tiende a sanar espontáneamente.⁶ En presencia de ampollas de sangre grandes e intactas, se recomienda realizar una incisión para evitar su ampliación, evitando así la obstrucción de las vías respiratorias. Su tratamiento ha sido definido como sintomático, utilizando enjuague bucal y analgésicos y evitando alimentos gruesos.⁷ En los pacientes inhaladores de esteroides, las gárgaras con agua, seguidas de una aplicación de medicina, han parecido ser una vía bastante efectiva para prevenir la aparición de ABH.⁶ En los casos en los que la ABH afecta el paladar blando y la ampolla ha reventado, se recomienda el uso de profilaxis antibiótica y enjuagues antisépticos, como el digluconato de clorhexidina en concentraciones de 0,25% o 0,12%, para ayudar a reducir los síntomas y evitar una infección secundaria. En otras zonas menos comunes, el clínico debe evaluar si el uso de antibióticos es pertinente. Los enjuagues con clorhexidina son recomendados para todos los pacientes.¹⁰ En este artículo reportamos un caso de ABH, el cual apareció cuatro meses después de realizar una cirugía de alargamiento coronal, para corregir una erupción pasiva alterada, en una paciente de 21 años. Se describen las características clínicas y su respectivo manejo.

CLINICAL CASE

A 21-year-old patient with no relevant medical history at the initial examination seeks periodontal evaluation as she has short square teeth with high keratinized gingival band and sulci shorter than 3 mm, so she is diagnosed with type 1B altered passive eruption (Figure 1). Lab tests are requested prior to the surgical procedure, since the patient reports not seeking medical or dental consultation more than two years ago, and the recommended surgical procedure is extensive and invasive; the tests results are all normal. The first step is the hygienic phase, providing the patient with strict oral hygiene instructions, as well as prophylaxis and use of ultrasonic magneto, in order to remove calcified plaque. The procedure of choice is crown lengthening surgery from the first right molar to the first left molar, in order to correct the altered passive eruption and improve patient's aesthetics. Four cartridges of 2% lidocaine + 1:80000 epinephrine are applied, conducting the pre-surgery height and width measurements of initial clinical crown and the tooth size expected after the procedure, defining a blood point. The height of the keratinized gingiva and the depth of the sulcus are also measured to confirm the diagnosis. The surgical procedure consists of making an internal bevel incision from mesial of the first right molar to mesial of the first left molar, excluding the interdental papilla, from the mesial angle-line to the distal angle-line of each tooth. This is followed by an intracrevicular incision. The gingival collar is removed and an incision is made to divide the interdental papilla instead of completely remove it, in order to avoid its atrophy. Then a mucoperiosteal flap is elevated, performing osteoplasty to correct bony bumps and improve bone anatomy, as well as osteotomy to place the bone crest 2 mm from the cemento-enamel junction. Finally, root planing is performed, as well as the suture of the flap apically positioned. Post-surgery instructions are given in writing, prescribing azithromycin 500 mg, 1 a day for 3 days, and Nimesulide 100 mg 1 every 12 hours for 3 days (Figure 2).

CASO CLÍNICO

Una paciente de 21 años de edad, sin antecedentes médicos de importancia a la evaluación inicial, acude a valoración periodontal por presentar dientes cortos y cuadrados, con alta banda de encía queratinizada y surcos menores a 3 mm, por lo que se diagnostica una erupción pasiva alterada tipo 1B (Figura 1). Se ordenan exámenes de laboratorio previos al procedimiento quirúrgico, dado que la paciente reporta no asistir a consulta médica u odontológica hace más de dos años, y el procedimiento quirúrgico a realizar es extenso e invasivo; los resultados de los exámenes son normales. Se realiza primero la fase higiénica, que consiste en darle a la paciente instrucciones de higiene oral estrictas, así como profilaxis y uso de equipo ultrasónico magneto, con el fin de retirar la placa calcificada. Se decide realizar una cirugía de alargamiento coronal desde el primer molar derecho al primer molar izquierdo, para corregir la erupción pasiva alterada y mejorar la estética de la paciente. Se colocan cuatro carpules de lidocaína al 2% + 1:80000 de epinefrina. Se realizan las mediciones prequirúrgicas de altura y ancho de corona clínica iniciales y del tamaño dental que se desea lograr, y se coloca un punto sangrante. También se mide la altura de la encía queratinizada y la profundidad del surco para confirmar el diagnóstico. El procedimiento quirúrgico consiste en realizar una incisión a bisel interno desde mesial del primer molar derecho a mesial del primer molar izquierdo, de forma festoneada, sin incluir la papila interdental, desde el ángulo-línea mesial al ángulo-línea distal de cada diente. Esto se continúa con una incisión intracrevicular. Se retira el collar gingival y se realiza una incisión para dividir la papila interdental y no sacarla por completo, con el fin de evitar su atrofia. Luego se eleva un colgajo mucoperiostico y se hace osteoplastia para corregir abultamientos óseos y mejorar la anatomía ósea, y se realiza osteotomía con el fin de dejar la cresta ósea a 2 mm de la unión amelocementaria. Finalmente, se realiza el alisado radicular, la sutura del colgajo posicionado apicalmente, se dan las instrucciones posquirúrgicas por escrito y se medica con azitromicina 500 mg, 1 diaria por 3 días, y Nimesulide de 100 mg, 1 cada 12 horas por 3 días (Figura 2).

Stitches are removed ten days later, observing normal post-surgical healing. During a follow-up examination two weeks later, there are some swollen red areas by the interdental papillae of premolars and incisors, which were more noticeable between the premolars of the first quadrant and the central and lateral incisor of the second quadrant. One month later, the swollen area covers the margins of the abovementioned teeth (Figure 3), and in the post-surgery, four months afterwards, there were some red defined smooth lesions of about 1 cm in diameter at the level of the first right and left premolar; the central incisors bled easily (Figure 4 A, B, and C). The patient reports burning at consuming acidic foods and discomfort and bleeding at brushing. Biopsy of both lesions is performed, sending them to laboratory for histopathological study by oral pathologist. The histopathology evaluation showed an ulcerated epithelium with necrotic foci; the dense connective tissue shows an inflammatory infiltrate characterized by presence of lymphocytes and plasma cells. There are abundant polymorphonuclear neutrophils (PMN) and some eosinophils; there are abundant extravasated erythrocytes with ruptured capillaries. Numerous bacterial colonies can be seen in the periphery and inside the epithelium. There is no evidence of malignancy (Figure 5). All this confirms the diagnosis.

Se retiran los puntos de sutura a los diez días, cuando se observa que la cicatrización posquirúrgica fue normal, y a las dos semanas de seguimiento se observan algunas áreas, a nivel de las papilas interdentes de premolares e incisivos, edematizadas y enrojecidas, siendo más notorias entre los premolares del primer cuadrante y entre el incisivo central y lateral del segundo cuadrante. Al mes se observa que el área edematizada abarca los márgenes de los dientes mencionados (Figura 3), y en el posquirúrgico, a los cuatro meses, se encuentran lesiones rojas, circunscritas, de superficie lisa, aproximadamente de 1 cm de diámetro, a nivel del primer premolar derecho e izquierdo, y en los incisivos centrales sangra fácilmente (Figura 4 A, B y C). La paciente refiere ardor al consumir alimentos ácidos e incomodidad y sangrado al cepillado. Se realiza biopsia de ambas lesiones, las cuales son enviadas al laboratorio para su estudio histopatológico por parte de patólogo oral. La histopatología muestra un epitelio ulcerado con focos necróticos; en el tejido conectivo denso se observa un infiltrado inflamatorio caracterizado por presencia de linfocitos y algunas células plasmáticas. Hay una abundante cantidad de polimorfonucleares neutrófilos (PMN) y algunos eosinófilos; se observa una abundante cantidad de eritrocitos extravasados con ruptura de capilares. En la periferia y al interior del epitelio se observan numerosas colonias bacterianas. No hay evidencia de malignidad (Figura 5). Con todo esto se corrobora el diagnóstico.



Figure 1. *Altered passive eruption from molar to molar*

Figura 1. Erupción pasiva alterada de molar a molar

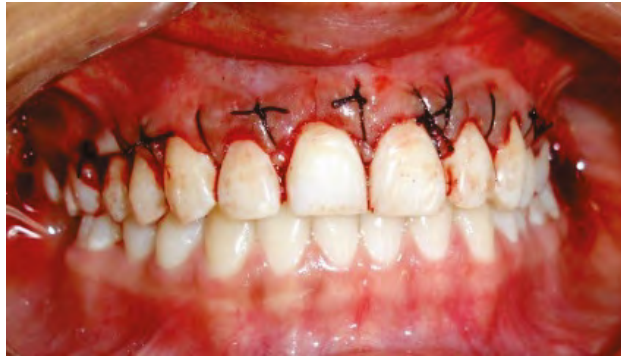


Figure 2. *Crown lengthening surgery to correct the altered passive eruption and level the gingival zenith*

Figura 2. *Cirugía de alargamiento coronal para corregir la erupción pasiva alterada y nivelar el zenit gingival*



Figure 3. *Post-surgical image one month later*

Figura 3. *Imagen posquirúrgica al mes*



Figure 4. *Clinical image four months later showing the lesions at the upper posterior incisors and premolars after surgery. A. Image of the left upper posterior area. B. Image of anterior teeth. C. Image of the right upper posterior area. Localized lesions can be seen.*

Figura 4. *Imagen clínica a los cuatro meses, en la que se evidencian las lesiones a nivel de incisivos y premolares superiores posterior a la cirugía. A. Imagen superior posterior izquierda. B. Imagen de dientes anteriores. C. Imagen superior posterior derecha. Se evidencian las lesiones localizadas.*

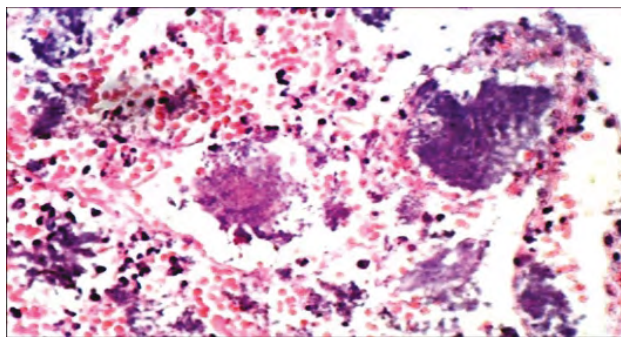


Figure 5. Histopathologic image of the lesion with hematoxylin-eosin staining (scale: 400x)

Figura 5. Imagen histopatológica de la lesión con tinción hematoxilina-eosina (escala: 400x)

Scaling and root planing of the affected area were done as supplementary treatment, prescribing analgesic therapy. The patient's postoperative period was favorable, and in a follow-up period of fifteen days she showed adequate evolution with no signs of relapse (Figure 6).

Como tratamiento conjunto se realiza raspaje y alisado radicular de la zona afectada, y se envía terapia analgésica. La paciente cursó un posoperatorio favorable, y en un periodo de seguimiento de quince días mostró una adecuada evolución sin signos de recidiva (Figura 6).



Figure 6. Postsurgical image one year later

Figura 6. Imagen posquirúrgica al año

DISCUSSION

ABH is characterized by the sudden appearance of a blister with blood on the oral mucosa, with no identifiable cause or related systemic disorder. While its etiology is still uncertain, it has been described as a multifactorial phenomenon, in which functional or dental trauma seem to be the most important risk factor.¹⁰

Luthra et al¹¹ state that the causes reported in the literature are related to minor trauma, such as consumption of hot foods, dental restorations, periodontal therapy, endoscopic trauma, dental anesthesia injections, steroid inhalers, rinses of digluconate chlorhexidine, and snoring. In the present clinical case, after periodontal surgery the patient shows ABH during the postoperative period, suggesting that the trauma caused to the tissues during surgery could trigger its appearance.

According to the literature, the most common location of ABH tends to be the soft palate, as reported by Yamamoto et al¹² in a study conducted in eleven patients who had ABH in this part of the mouth, either to the right or to the left side, or above the medium line; However, the same authors claim that, although this is the main affected area, it is not the only one. Other areas include the buccal mucosa, the lips and the lateral surface of the tongue. While the soft palate is the site most commonly affected, Pahl et al¹³ reported a case in which the junction of hard and soft palate was affected; in fact, this case also reported obstruction of the upper airway, which is not common and had not been reported in the literature so far. However, in contradiction to Yamamoto et al,¹² who point out that the masticatory mucosa, the hard palate, and the gingiva are not affected, the present case shows that, after a surgical intervention (considered as local trauma), the vestibular marginal gingiva of several upper teeth was affected.

DISCUSIÓN

La ABH se caracteriza por la repentina aparición de una ampolla sangrante en la mucosa oral, sin una causa identificable o un desorden sistémico relacionado. A pesar de que su etiología continúa incierta, se ha descrito como un fenómeno multifactorial, en cuya aparición el trauma dental o funcional puede ser el factor de riesgo más importante.¹⁰

Luthra et al¹¹ dicen que las causas que han sido reportadas en la literatura están relacionadas con traumas menores, como consumo de alimentos calientes, restauraciones dentales, terapia periodontal, trauma endoscópico, inyecciones dentales de anestesia, inhaladores de esteroides, enjuagues con digluconato de clorhexidina y ronquidos. En el presente caso clínico se observa que, posterior a una intervención quirúrgica periodontal, la paciente muestra la aparición de ABH durante su periodo posoperatorio, lo que permite suponer que el trauma causado a los tejidos en el acto quirúrgico pudo repercutir en su aparición.

De acuerdo con la literatura, la ubicación más común de la ABH suele ser el paladar blando, como lo reportan Yamamoto et al¹² en un estudio realizado en once pacientes, en quienes la ABH comprometió esta región, bien fuera en el lado derecho, el izquierdo o sobre la línea media; sin embargo, los mismos autores describen que, si bien esta es la zona principal, no es la única que puede resultar afectada. Entre otras zonas se encuentran la mucosa bucal, el labio y la superficie lateral de la lengua. Aunque el paladar blando es el sitio de mayor afección, Pahl et al¹³ reportan un caso en el que la unión entre el paladar duro y el blando fue la zona afectada; de hecho, en este caso también se reportó la obstrucción de la vía aérea superior, lo cual no es común, y hasta la fecha de la publicación no se reportaba en la literatura. Sin embargo, contrario a lo dicho por Yamamoto et al,¹² quienes señalan que la mucosa masticatoria, el paladar duro y las encías no se ven afectados, el presente caso muestra que, después de una intervención quirúrgica (tomada como un trauma local), sí se puede ver afectada la encía marginal vestibular de varios dientes superiores.

Even though the diagnosis of ABH is purely clinical, the patient's systemic condition must be considered. Singh et al¹⁴ point out that a history of continuous trauma of the teeth to the mucosa may lead to a presumptive diagnosis of ABH; however, the differential diagnosis excludes cutaneous, mucous or blood pathologies, such as erythema multiforme, lichen planus, pemphigus, pemphigoid, thrombocytopenia, and Willebrand disease.

The case we presented led to a diagnosis of ABH, given the patient's normal systemic condition, the normal laboratory test results, and the absence of any of the diseases listed in the patient's personal and family medical record.

ABH is usually described as a unique lesion in the areas described by the authors; however, the lesions may be multiple as described by Patigaroo et al⁸ presenting a case of a twenty-eight year old patient with multiple hemorrhagic bullous lesions. The present case also had multiple lesions in the marginal gingiva of several teeth, all of which were surgically intervened.

Curran and Rives⁹ described the appearance of gingival ABH three to four days after scaling and root planing therapy in the gingiva adhered to the palatine side of the upper central incisor, a location that had not been reported to date. The characteristics given in that case report were: bullous high lesion of about 6 x 3 mm in diameter, which a few days later left a red, erythematous, ulcerated surface that healed with no scarring; the patient reported the same episode in different areas of the gingiva, always subsequent to the scaling and root planing therapy. This case is similar to the one of the present article; in fact, both cases had multiple erythematous lesions with ulcerated surface after local trauma (the periodontal interventions). Similarly, the histopathological study in Curran and Rives' case⁹ shows ulcerated tissue with inflammatory infiltrate, in which lymphocytes were the most abundant cells, and

Aunque el diagnóstico de la ABH es puramente clínico, se debe tener en cuenta la condición sistémica del paciente. Singh et al¹⁴ señalan que una historia de trauma continuo de los dientes a la mucosa puede llevar a un diagnóstico presuntivo de ABH; sin embargo, el diagnóstico diferencial se hace excluyendo patologías cutáneas, mucosas o sanguíneas, como eritema multiforme, liquen plano, pénfigo, penfigoide, trombocitopenia y la enfermedad de Willebrand.

El caso que presentamos nos guió a un diagnóstico de ABH, dada la condición sistémica normal de la paciente, los resultados normales de los exámenes de laboratorio, y la ausencia de alguna de las patologías nombradas en los antecedentes médicos personales y familiares.

La ABH se describe generalmente como una lesión única en las zonas descritas por los autores; sin embargo, no se descarta que las lesiones puedan ser múltiples, como lo describen Patigaroo et al,⁸ presentando un caso de una paciente de veintiocho años con múltiples lesiones bullosas hemorrágicas. El caso presentado también cursó con múltiples lesiones en la encía marginal de varias piezas dentarias, todas intervenidas quirúrgicamente.

Curran y Rives⁹ describieron la aparición de la ABH gingival entre tres y cuatro días después de la terapia de raspaje y alisado radicular, en la encía adherida a la cara palatina del incisivo central superior, localización que no había sido reportada hasta la fecha de su publicación. Las características dadas en ese reporte de caso fueron: lesión bullosa, elevada, de diámetro aproximado de 6 x 3 mm, que a los pocos días dejó una superficie roja, eritematosa y ulcerada, que sanó sin dejar cicatriz; la paciente reportó el mismo episodio en diferentes zonas de la encía, siempre posterior a la terapia de raspaje y alisado radicular. Este caso en particular es similar al del presente artículo; de hecho, en ambos casos se reportaron múltiples lesiones eritematosas, de superficie ulcerada posterior a trauma local (tomado como las intervenciones periodontales). De igual manera, el estudio histopatológico mostrado en el caso de Curran y Rives⁹ muestra tejido ulcerado con infiltrado inflamatorio, en el que las células más abundantes fueron los linfocitos, y

the systemic health condition determines the ABH diagnosis in both case reports.

CONCLUSION

ABH could be diagnosed in this case despite the fact that it occurred in the vestibular area of upper teeth following a crown enlargement surgery—a condition that is unusual and has not been reported in the revised bibliography—. This highlights the importance of conducting follow ups after each surgical procedure.

CONFLICT OF INTEREST

The authors declare not having conflicts of interest.

CORRESPONDING AUTHOR

Pablo Molano Valencia
(+572) 558 88 12, (+57) 310 412 5818
pablomol42@hotmail.com
Calle 5 Número 38-25, consultorio 408. Edificio Plaza San Fernando
Cali, Colombia

la condición de salud sistémica determina en ambos reportes de caso el diagnóstico de ABH.

CONCLUSIÓN

La ABH pudo ser diagnosticada en este caso, a pesar de que se presentó en la región vestibular de dientes superiores después de una cirugía de alargamiento coronal —condición que es inusual y no ha sido reportada en la bibliografía revisada—. Esto permite hacer énfasis en la importancia de realizar seguimiento después de cada procedimiento quirúrgico.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran no tener ningún conflicto de interés.

CORRESPONDENCIA

Pablo Molano Valencia
(+572) 558 88 12, (+57) 310 412 5818
pablomol42@hotmail.com
Calle 5 Número 38-25, consultorio 408. Edificio Plaza San Fernando
Cali, Colombia

REFERENCES / REFERENCIAS

1. Giuliani M, Favia GF, Lajolo C, Miani CM. Angina bullosa haemorrhagica: Presentation of eight new cases and a review of the literature. *Oral Dis* 2002; 8(1): 54-58.
2. Grinspan D, Abulafia J, Lanfranchi H. Report: angina bullosa hemorrhagica. *Int J Dermatol* 1999; 38(7): 525–528.
3. Horie N, Kawano R, Inaba J, Numa T, Kato T, Nasu D et al. Angina bullosa hemorrhagica of the soft palate: A clinical study of 16 cases. *J Oral Sci* 2008; 50(1): 33-36.
4. Beguerie JR, Gonzalez S. Angina bullosa hemorrhagica: Report of 11 cases. *Dermatol Reports* 2014; 6(1): 5282. DOI: 10.4081/dr.2014.5282 URL: <https://doi.org/10.4081/dr.2014.5282>
5. Torres Kara MT, Elston DM. Angina bullosa hemorrhagica clinical presentation: causes [Internet]. [S.L.]: Medscape; 2015. [Consultado 2016 Jun 21]. Disponible en: <http://emedicine.medscape.com/article/1078960clinical#b5>
6. Maciel-da-Rosa A, Geraldo-Pappen F, Neutzling-Gomes AP. Angina bullosa hemorrhagica: a rare condition? *RSBO* 2012; 9(2): 190-192.

7. Ravi Prakash SM, Prakash D Toshniwal O, Nath Singh N, Verma S. Angina bullosa hemorrhagica with a possible relation to dental treatment, Diabetes Mellitus, steroid inhaler and local trauma: Report of 3 Cases. *J Ind Acad Oral Med Radiol* 2010; 22(4): 42-44. DOI: 10.5005/jp-journals-10011-1067 URL: [http:// doi.org/10.5005/jp-journals-10011-1067](http://doi.org/10.5005/jp-journals-10011-1067)
8. Patigaroo SA, Dar NH, Thinles T, Ul-Islam M. Multiple angina bullosa hemorrhagica: a case report. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2014; 9 (3): 125–127. DOI: 10.1016/j.pedex.2014.05.003 URL: <https://doi.org/10.1016/j.pedex.2014.05.003>
9. Curran AE, Rives RW. Angina bullosa hemorrhagica: an unusual problem following periodontal therapy. *J Periodontol* 2000; 71(11): 1770-1773. DOI: 10.1902/jop.2000.71.11.1770 URL: <https://doi.org/10.1902/jop.2000.71.11.1770>
10. Medeiros-Martins CA, Vacilotto-Gomes F, Luiz-Freddo A, Heitz C, Ckless-Moresco F, Lopes-da-Silveira JO. Angina bullosa hemorrhagica (ABH): diagnosis and treatment. *RFO UPF* 2012; 17(3): 347-351.
11. Luthra K, Reddy Y, Wadhawan R, Solanki G. Angina bullosa hemorrhagica; a rare entity: an overview. *Acta Biomed Scientia* 2014; 1(3):133-135.
12. Yamamoto K, Fujimoto M, Inoue M, Maeda M, Yamakawa N, Kirita T. Angina bullosa hemorrhagica of the soft palate: Report of 11 cases and literature review. *J Oral Maxillofac Surg* 2006; 64(9): 1433-1436. DOI: 10.1016/j.joms.2005.11.058 URL: <http://dx.doi.org/10.1016/j.joms.2005.11.058>
13. Pahl C, Yarrow S, Steventon N, Saeed NR, Dyar O. Angina bullosa hemorrhagica presenting as acute upper airway obstruction. *Br J Anaesth* 2004; 92(2): 283-286.
14. Singh D, Misra N, Agrawal S, Misra P. Angina bullosa hemorrhagica. *BMJ Case Rep* 2013; 2013. DOI: 10.1136/bcr-2012-008505 URL: <https://dx.doi.org/10.1136/bcr-2012-008505>