

LINGUAL SUBMUCOSAL NEOPLASM: A RARE CASE OF PLASMA CELLS GRANULOMA

--Manuscript Draft--

Manuscript Number:	DentalCadmos-D-21-00019R2
Article Type:	Caso Clinico
Section/Category:	Patologia Orale
Keywords:	Neoplasm; Plasmacells granuloma; Igg4-RD; Biopsy; Surgery Neoformazione, Granuloma Plasmacellulare, IgG4-RD, Biopsia, Chirurgia
Corresponding Author:	DAVIDE CHIAPPINI GHEDI, Brescia ITALY
First Author:	DAVIDE CHIAPPINI
Order of Authors:	DAVIDE CHIAPPINI Stefano Salgarello, Professore Elisabetta Audino, Dottoressa
Abstract:	Obiettivi: lo scopo del seguente articolo è illustrare nel dettaglio, dalla fase diagnostica a quella terapeutica, un caso emblematico di granuloma plasmacellulare sottolineando gli aspetti caratteristici riportati in Letteratura in particolare la sua possibile correlazione con la IgG4-RD (IgG4-related disease). Obiettivo dell'articolo è anche quello di contribuire ad implementare la carenza di articoli a riguardo in Letteratura dovuta essenzialmente alla rarità della manifestazione intra-orale, così da facilitare il clinico specialista nella diagnosi differenziale. La diagnosi differenziale rappresenta un momento fondamentale nel processo clinico di ogni medico. Cogliere l'eventuale malignità di neoformazioni del cavo orale è importante per definire un corretto protocollo diagnostico terapeutico il cui punto cruciale è rappresentato dalla biopsia incisionale della lesione. L'esame istologico unito all'esame clinico permettono di creare un percorso di cura ottimale per il paziente. Materiali e Metodi : l'articolo riporta il caso clinico di una paziente di 73 anni con un'estesa tumefazione dell'emilingua sinistra (a livello del dorso) originatasi in pochissimi giorni. La paziente in anamnesi non riporta patologie significative a livello sistemico. L'esame clinico unito all'anamnesi riportata dalla paziente avvalorava maggiormente l'ipotesi reattiva alla base della formazione della lesione. In anestesia locale si procede perciò ad escissione chirurgica tramite strumentazione smussa dell'intera neoformazione ed invio al laboratorio per analisi istopatologica. Ad una settimana ed a tre settimane (primo follow-up) la guarigione è nella norma con un decorso post-operatorio, riferito dalla paziente estremamente buono. La diagnosi istopatologica è "granuloma plasmacellulare". La lesione si caratterizza per un contenuto prevalente di cellule infiammatorie in particolare plasmacellule policlonali. La policlonalità è uno degli aspetti più importanti che permette di escludere disordini linfoproliferativi (es. mieloma multiplo). Esami ematochimici e sierici specifici escludono la presenza di una IgG4-RD; questa rappresenta una malattia sistemica caratterizzata dall'accumulo a livello di più organi di plasmacellule. A seconda del numero e gravità degli organi colpiti la malattia può avere un decorso più o meno grave. Viene perciò definita come irritativa/traumatica verosimilmente l'eziopatogenesi della neoformazione oggetto del presente case-report. Alla paziente in esame viene impostato un follow-up semestrale nel contesto delle normali visite di prevenzione odontoiatrica. Risultati e Conclusioni: il corretto inquadramento di neoformazioni o lesioni mucose del cavo orale è un aspetto fondamentale per ogni clinico. L'aspetto superficiale di lesioni sottomucose non sempre aiuta il processo diagnostico a tal punto che spesso è solo la fase intra-operatoria oltre che l'esame istopatologico ad essere dirimente. La correlazione di alcune malattie mucose/neoformazioni del cavo orale con patologie sistemiche, anche

gravi, è eloquente di quanto l'odontoiatra possa giocare un ruolo attivo nella diagnosi di malattie più complesse a livello sistemico. Implicazioni Cliniche: Definire la tipologia di lesione, per poi attuare un protocollo medico-chirurgico adeguato, risulta fondamentale per tutte le neoformazioni del cavo orale, dimensioni importanti della lesione o sedi anatomiche maggiormente a rischio necessitano di una conoscenza topografica dettagliata per scongiurare il rischio di danni anatomici o complicanze (intra e post operatorie) anche gravi. Aim: Goal of the following article is to illustrate the workflow between the diagnostic and therapeutic phases, in an emblematic case of plasmacells granuloma, while underlining the typical aspects reported in Literature in particular its possible connection with IgG4-RD (IgG4-related disease). Furthermore, we hope to compensate for the lack of articles in Literature regarding submucosal lingual neoplasms due to the rarity of oral manifestation as to aid clinicians in their differential diagnosis. Understanding the possible malignancy of oral neoplasms is important to define a correct diagnostic-therapeutic protocol. The most important phase of this protocol is the biopsy of the lesion. Histological and clinical exam permit the clinicians to create a good path of healing. In case of malignancy suspect we suggest to proceed with a incisional biopsy in order to validate the clinical diagnosis and understand the correct clinical and surgical therapy. Materials and Methods: we present the case of a 73 years old female patient presenting a large area of swelling on the upper left side of her tongue which developed in few days. No diseases have been reported and no drugs had been taken by the patient. Clinical examination and anamnesis validate mainly an irritating etiology of the neoformation. Local anesthesia was administered and surgery excision was performed by means of blunt instrumentation of the entire neoplasm. At the first and third week (first follow-up) healing was regular and, according to patient, post-operative progress has been extremely good. Histopathological diagnosis was "plasmacells granuloma".

Inflammatory content mainly characterizes these types of lesions in particular polyclonal plasma cells. Polyclonality is an important factor that permits to exclude lymphoproliferative disorders (e.g multiple myeloma). Serum and haemochemistry exams excluded IgG4-RD; this is a systemic disease characterized by collection of plasma cells in different organs. Depending on the numbers and the seriousness of the involved organs disease could be more or less aggressive. Described neoplasm has been related to an irritative cause. A six-month follow-up has been recommended during the usual dentistry visits. Results and Conclusions: the right framework of neoplasms and mucosal lesions of oral cavity is an essential aspect for every clinician. The exteriority of submucosal lesion do not always help clinicians in diagnostic phase so much so that only intra-operative phase, associated with histopathological exam, is significant. Correlation of oral diseases or neoplasms to systemic pathologies, serious too, is eloquent. In fact dentists can play an important role in the interception of complex diseases. Clinical implications: Defining the aspects of oral lesions, in order to perform a correct clinical and surgery protocol, is fundamental; in particular wide extensions of neoplasms or critical anatomical sites need an appropriate knowledge to avoid anatomical damages or complications (intra and post operative) also very serious.

Neoformazione sottomucosa linguale: un raro caso di granuloma plasmacellulare

Obiettivi: lo scopo del seguente articolo è illustrare nel dettaglio, dalla fase diagnostica a quella terapeutica, un caso emblematico di granuloma plasmacellulare sottolineando gli aspetti caratteristici riportati in Letteratura in particolare la sua possibile correlazione con la IgG4-RD (IgG4-related disease). Obiettivo dell'articolo è anche quello di contribuire ad implementare la carenza di articoli a riguardo in Letteratura dovuta essenzialmente alla rarità della manifestazione intra-orale, così da facilitare il clinico specialista nella diagnosi differenziale. La diagnosi differenziale rappresenta un momento fondamentale nel processo clinico di ogni medico. Cogliere l'eventuale malignità di neoformazioni del cavo orale è importante per definire un corretto protocollo diagnostico terapeutico il cui punto cruciale è rappresentato dalla biopsia incisionale della lesione. L'esame istologico unito all'esame clinico permettono di creare un percorso di cura ottimale per il paziente.

Materiali e Metodi : l'articolo riporta il caso clinico di una paziente di 73 anni con un'estesa tumefazione dell'emilingua sinistra (a livello del dorso) originatasi in pochissimi giorni. La paziente in anamnesi non riporta patologie significative a livello sistemico. L'esame clinico unito all'anamnesi riportata dalla paziente avvalorava maggiormente l'ipotesi reattiva alla base della formazione della lesione. In anestesia locale si procede perciò ad escissione chirurgica tramite strumentazione smussa dell'intera neoformazione ed invio al laboratorio per analisi istopatologica. Ad una settimana ed a tre settimane (primo follow-up) la guarigione è nella norma con un decorso post-operatorio, riferito dalla paziente estremamente buono. La diagnosi istopatologica è "granuloma plasmacellulare". La lesione si caratterizza per un contenuto prevalente di cellule infiammatorie in particolare plasmacellule policlonali. La policlonalità è uno degli aspetti più importanti che permette di escludere disordini linfoproliferativi (es. mieloma multiplo). Esami ematochimici e sierici specifici escludono la presenza di una IgG4-RD; questa rappresenta una malattia sistemica caratterizzata dall'accumulo a livello di più organi di plasmacellule. A seconda del numero e gravità degli organi colpiti la malattia può avere un decorso più o meno grave. Viene perciò definita come irritativa/traumatica verosimilmente l'eziopatogenesi della neoformazione oggetto del presente case-report. Alla paziente in esame viene impostato un follow-up semestrale nel contesto delle normali visite di prevenzione odontoiatrica.

Risultati e Conclusioni: il corretto inquadramento di neoformazioni o lesioni mucose del cavo orale è un aspetto fondamentale per ogni clinico. L'aspetto superficiale di lesioni sottomucose non sempre aiuta il processo diagnostico a tal punto che spesso è solo la fase intra-operatoria oltre che l'esame istopatologico ad essere dirimente. La correlazione di alcune malattie mucose/neoformazioni del cavo orale con patologie sistemiche, anche gravi, è eloquente di quanto l'odontoiatra possa giocare un ruolo attivo nella diagnosi di malattie più complesse a livello sistemico.

Implicazioni Cliniche: Definire la tipologia di lesione, per poi attuare un protocollo medico-chirurgico adeguato, risulta fondamentale per tutte le neoformazioni del cavo orale, dimensioni importanti della lesione o sedi anatomiche maggiormente a rischio necessitano di una conoscenza topografica dettagliata per scongiurare il rischio di danni anatomici o complicanze (intra e post operatorie) anche gravi.

PAROLE CHIAVE: Neoformazione, Granuloma Plasmacellulare, IgG4-RD, Biopsia, Chirurgia

LINGUAL SUBMUCOSAL NEOPLASM: A RARE CASE OF PLASMACELLS GRANULOMA

Aim: Goal of the following article is to illustrate the workflow between the diagnostic and therapeutic phases, in an emblematic case of plasmacells granuloma, while underlining the typical aspects reported in Literature in particular its possible connection with IgG4-RD (IgG4-related disease). Furthermore, we hope to compensate for the lack of articles in Literature regarding submucosal lingual neoplasms due to the rarity of oral manifestation as to aid clinicians in their differential diagnosis. Understanding the possible malignancy of oral neoplasms is important to define a correct diagnostic-therapeutic protocol. The most important phase of this protocol is the biopsy of the lesion. Histological and clinical exam permit the clinicians to create a good path of healing. In case of malignancy suspect we suggest to proceed with a incisional biopsy in order to validate the clinical diagnosis and understand the correct clinical and surgical therapy.

Materials and Methods: we present the case of a 73 years old female patient presenting a large area of swelling on the upper left side of her tongue which developed in few days. No diseases have been reported and no drugs had been taken by the patient. Clinical examination and anamnesis validate mainly an irritating etiology of the neoformation. Local anesthesia was administered and surgery excision was performed by means of blunt instrumentation of the entire neoplasm. At the first and third week (first follow-up) healing was regular and, according to patient, post-operative progress has been extremely good. Histopathological diagnosis was "plasmacells granuloma". Inflammatory content mainly characterizes these types of lesions in particular polyclonal plasma cells. Polyclonality is an important factor that permits to exclude lymphoproliferative disorders (e.g multiple myeloma). Serum and haemochemistry exams excluded IgG4-RD; this is a systemic disease characterized by collection of plasma cells in different organs. Depending on the numbers and the seriousness of the involved organs disease could be more or less aggressive. Described neoplasm has been related to an irritative cause. A six-month follow-up has been recommended during the usual dentistry visits.

Results and Conclusions: the right framework of neoplasms and mucosal lesions of oral cavity is an essential aspect for every clinician. The exteriority of submucosal lesion do not always help clinicians in diagnostic phase so much so that only intra-operative phase, associated with histopathological exam, is significant. Correlation of oral diseases or neoplasms to systemic pathologies, serious too, is eloquent. In fact dentists can play an important role in the interception of complex diseases.

Clinical implications: Defining the aspects of oral lesions, in order to perform a correct clinical and surgery protocol, is fundamental; in particular wide extensions of neoplasms or critical anatomical sites need an appropriate knowledge to avoid anatomical damages or complications (intra and post operative) also very serious.

Key Words: Neoplasm, Plasmacells granuloma, Igg4-RD, Biopsy, Surgery

Neoformazione sottomucosa linguale: un raro caso di granuloma plasmacellulare

LINGUAL SUBMUCOSAL NEOPLASM: A RARE CASE OF PLASMA CELLS GRANULOMA

Autori:

Dott. Davide Chiappini

Prof. Stefano Alessandro Salgarello

Dott.ssa Elisabetta Audino

Dott. Davide Chiappini: Medico Odontoiatra - Consulente in Medicina e Patologia del Cavo Orale -
Libero Professionista in Brescia e Bergamo

Prof. Stefano Alessandro Salgarello: Clinica Odontoiatrica- Università degli Studi di Brescia

Dott.ssa Elisabetta Audino: Clinica Odontoiatrica- Università degli Studi di Brescia

Autore di riferimento:

Dott. Davide Chiappini

dave_92@hotmail.it

cell. 3342601458

Ghedi (Bs), Strada per Isorella, Casc. Bonifica, Tv 4°, n°2

Neoformazione sottomucosa linguale: un raro caso di granuloma plasmacellulare

Introduzione

Le patologie che coinvolgono il cavo orale vengono didatticamente distinte in base alle loro caratteristiche macroscopiche (più raramente secondo un criterio topografico) quali il colore (lesioni rosse, bianche, pigmentate, viola/bluastre) per rendere più agevole il processo diagnostico del clinico. Questa classificazione, ampiamente citata nei testi di riferimento, è perfettamente idonea qualora si presentino lesioni che coinvolgano la superficie mucosa, cioè l'epitelio orale, in quanto permettono già dall'aspetto di escludere o confermare alcune patologie quantomeno dal punto di vista clinico.

Per quanto concerne le lesioni sottomucose la questione è più complessa. La mucosa spesso può non essere coinvolta al punto che l'unico strumento di reale utilità nel comprendere seppur parzialmente la loro natura è la palpazione della lesione. Si tratta generalmente di lesioni singole, quindi unilaterali, dolenti o meno alla palpazione, più o meno profonde, con evidenti conseguenze sul piano del trattamento chirurgico e prognostico. Fondamentale è sicuramente l'aspetto anamnestico, in particolare la presenza o assenza di sintomi e il tempo di formazione della lesione (giorni, settimane, mesi se non addirittura anni) in quanto permettono di ipotizzare l'origine delle lesioni: neoplastica (benigna o maligna), infiammatoria traumatica, infettiva o immuno-mediata.

L'anamnesi deve poi considerare ogni eventuale patologia concomitante, la neoformazione che si sta prendendo in esame nonché eventuali trattamenti farmacologici in atto dal paziente. In caso di lesioni di volume significativo risulta utile la prescrizione di esami radiologici complementari quali la Risonanza Magnetica Nucleare, che rappresenta ad oggi il gold standard nell'esame dei tessuti molli del cavo orale.

Materiali e metodi: L'articolo riporta il caso clinico e il trattamento di una paziente con un'estesa neoformazione linguale sinistra che in seguito all'esame istopatologico è stata classificata come granuloma plasmacellulare.

Discussione del caso

Il paziente LR di 73 anni, di sesso femminile si è presentata alla nostra attenzione nel febbraio 2019 riferendo un esteso rigonfiamento dell'emilingua sinistra. Fig.1

L'indagine anamnestica remota non ha evidenziava una storia clinica rilevante da un punto di vista patologico.

La paziente riportava come la lesione fosse comparsa nell'arco di pochi giorni e di aver assistito ad un aumento dimensionale notevole di giorno in giorno tanto da rivolgersi al medico. Il volume della lesione si mantenne per poco meno di una quindicina di giorni per poi assistere ad una drastica riduzione dovuta, come riferito dalla paziente, al drenaggio spontaneo del contenuto pochi giorni prima della visita specialistica consigliata dal proprio odontoiatra di fiducia.

All'esame obiettivo la paziente presentava una neoformazione sottomucosa a limiti ben circoscritti e di consistenza duro elastica, mobile sul piano sottostante. La mucosa sovrastante appariva sana e di colorito roseo, integra e, a detta della paziente, di volume ridotto rispetto alla prima manifestazione; alla palpazione era assolutamente riconoscibile. A livello diagnostico, l'aspetto clinico combinato con l'anamnesi riportata dalla paziente sembrava escludere neoformazioni di carattere proliferativo maligno spostando la diagnosi verso una lesione di natura irritativa/traumatica. L'esame intraorale escludeva la presenza di fattori odontoiatrici potenzialmente coinvolti nella sua insorgenza come ad esempio margini taglienti o protesi incongrue. Il drenaggio spontaneo sembrava più riconducibile a lesioni quali cisti da stravasamento tipiche del labbro inferiore e di lunga meno frequenti a livello linguale oltre a verosimilmente escludere lesioni di origine neurologica quali schwannomi o neurofibromi del cavo orale (anche per l'aspetto intraoperatorio della lesione, sebbene anch'essi associati ad aumenti di volume anche significativi della sede in esame).

La caratteristica superficiale delle mucosa escludeva eventuali lesioni vascolari, nonostante patologie quali il linfangioma possano comunque causare quadri clinici simili. Altre diagnosi differenziali che possono essere poste sono l'actinomicosi della lingua (in tal caso dirimente è sicuramente l'esame istopatologico che manifesterebbe la presenza di colonie di actinomiceti¹), e il carcinoma sottomucoso linguale² (raro clinicamente e difficilmente associabile ad una lesione di così rapida insorgenza).

Per le motivazioni addotte, si decise per l'asportazione chirurgica della lesione linguale e successiva analisi biptica.

Si proseguì con infiltrazione di anestesia con vasocostrittore plessica ed incisione lineare mediana alla lesione con andamento postero-anteriore ed alla dissezione dell'intera neoformazione tramite strumentazione smussa e alla sua asportazione (Fig.2); clinicamente questa si presentava con un diametro maggiore di circa 2 cm ed in nessun punto si evidenziò la presenza di strutture vascolari maggiori (da sottoporre eventualmente ad isolamento chirurgico). Si è passati alla sutura (3,0 seta) Fig. 3. Al termine, si è somministrato antinfiammatorio per os (ibuprofene 400 mg/bustina) e si sono illustrate le norme post-chirurgiche (terapia antibiotica a largo spettro con Amoxicillina+a. Clavulanico 1gr/cp, 1 cp ogni 12 h per 2 giorni + terapia antisettica con clorexidina 0,12% coll. 2/3 sciacqui/die per almeno 15/20 giorni + antinfiammatorio ogni 4/6 h in giornata poi dal giorno successivo al bisogno); si dimette la paziente in assenza di sanguinamento e dolore.

Il campione anatomico prelevato viene fissato in formalina tamponata al 10% in un contenitore sterile ed inviato con apposita prescrizione allo specialista Anatomo-Patologo. Fig.4

A 7 giorni dalla data dell'escissione la guarigione era in linea con le aspettative ordinarie. Si procede a rimozione sutura. Fig.5. A 21 giorni la guarigione è completa. Fig.6

L'esame macroscopico del campione mostrava un nodulo brunastro privo di rivestimento mucoso e di dimensione massima pari a 2 cm. Istologicamente è costituito da muscolo striato della lingua caratterizzato da denso infiltrato infiammatorio prevalentemente costituito da plasmacellule policlonali con raccolte di granulociti neutrofili attorno a colonie batteriche e actinomicetiche. Non vengono riscontrate atipie.

La diagnosi istopatologica risulta essere di granuloma plasmacellulare

Il granuloma plasmacellulare

Il granuloma plasmacellulare è una lesione benigna rara caratterizzata dall'infiltrazione di plasmacellule la cui sede principale di insorgenza è il polmone, sebbene meno frequentemente lo si ritrovi a livello cerebrale, renale, gastrico e cardiaco. La manifestazione intraorale è estremamente rara³ al punto che risulta difficoltoso reperire dati certi di prevalenza, riportando la Letteratura per lo più solo case-reports.

La lesione, reattiva, venne descritta per la prima volta nel 1973 da Bahadori and Liebow come la proliferazione di cellule infiammatorie con una netta prevalenza di plasmacellule. Nel distretto testa-collo è stato riportato a livello della mucosa orale⁴, tonsillare⁵, temporale⁶ in regione sottomandibolare⁷, a livello dei seni paranasali⁸, linguale⁹ e dei tessuti gengivali/parodontali¹⁰.

Sebbene la lesione sia di origine e patogenesi poco chiara, si pensa ad un'origine reattiva conseguente ad un'infiammazione di tipo parodontale, periradicolare o da corpo estraneo. Alla base è possibile rintracciare una risposta esacerbata a farmaci quali l'amlodipina, tipicamente coinvolta in iperplasie gengivali¹¹. Vishnudas et al. riportano un caso emblematico di una paziente di anni 54 in terapia con amlodipina (10 mg/die) con estesa neoformazione (8 mesi circa) a livello mascellare con limitazioni alla masticazione, all'eloquio e alle normali pratiche di igiene domiciliare¹².

I primi casi di lesioni infiltrate di plasmacellule sono stati descritti tra la fine degli anni Sessanta e i primi anni Settanta a livello di labbra, gengive e lingua; al tempo venivano definite come gengivostomatiti atipiche o idiopatiche o allergiche. Le prime ipotesi diagnostiche riconducevano queste lesioni a sostanze allergeniche presenti in dentifrici, gomma da masticare o altre sostanze esogene, sebbene gli esami d'intolleranza si mostrassero inconcludenti¹³. Articoli più recenti sono ritrovabili in Letteratura con descrizione di lesioni gengivali in pazienti con malattia di IgG4¹⁴.

In ambito oncologico tumori composti principalmente da plasmacellule sono anche il mieloma multiplo e il plasmacitoma. Questi tumori, diversamente dal granuloma plasmacellulare, sono caratterizzati da una crescita monoclonale oltre che un rapporto tra catene leggere kappa e lambda pari a circa 10:1, ovvero molto maggiore rispetto al rapporto presente nelle lesioni di patogenesi infiammatoria.

L'aspetto clinico dei granulomi plasmacellulari può mimare lesioni maligne per la loro manifestazione clinica non omogenea oppure lesioni infettive come i papillomi soprattutto per l'aspetto "a cavolfiore" o peduncolato.

L'escissione chirurgica seguita dall'esame istologico permette una diagnosi di certezza e permette di valutare un follow up corretto. In caso di dubbio diagnostico in termini di malignità o benignità della lesione ampiamente consigliato è un'escissione parziale (biopsia incisionale) così da poter permettere in prima battuta una diagnosi certa istologica ed definire al meglio la terapia successiva.

Granuloma plasmacellulare e IgG4 related disease

L'esame microscopico della lesione in oggetto, data l'abbondanza di plasmacellule e immunoglobuline di tipo IgG4, suggerisce una verosimile IgG4 related disease.

Questa patologia è una condizione infiammatoria immuno-mediata che può colpire qualsiasi organo umano con coinvolgimento frequente delle ghiandole salivari e lacrimali (malattia di Mikulicz). I tessuti affetti contengono un infiltrato policlonale di plasmacellule: da qui la correlazione con il granuloma plasmacellulare. La fascia più a rischio è rappresentata dalla popolazione maschile della terza età con sintomi che aumentano nel corso dell'evoluzione della malattia seppur lentamente. I sintomi principali sono rappresentati da dolore alle articolazioni, ai tendini e affaticamento soprattutto quando sono coinvolti organi vitali. Il 20% dei pazienti con IgG4-RD presenta livelli sierici di IgG4 nella norma. Livelli sierici di IgG4 maggiori di 135 mg/dL sono considerati abbastanza eloquenti e significati ai fini diagnostici¹⁵.

Come accennato precedentemente, il coinvolgimento salivare e lacrimale può manifestarsi con parotiti bilaterali croniche e ricorrenti o ingrossamento delle ghiandole sottomandibolari o lacrimali (la presenza o meno di positività a anticorpi anti-SS-a e anti-SS-b è dirimente in questo caso per escludere la sindrome di Sjogren). La diagnosi di certezza si basa sull'esame istologico della lesione, in quanto esami ematochimici e sierologici, come nel caso dei livelli sierici delle IgG4, non sempre si dimostrano altamente specifici in quanto possono variare anche in alcune importanti patologie quali l'adenocarcinoma pancreatico o il linfoma. Pazienti con più di due organi coinvolti presentano generalmente livelli sierici alterati. Il trattamento di prima scelta è rappresentato dai glucocorticoidi (come il prednisolone) o farmaci immunosoppressivi (come l'azatiopina). Il trattamento porta ad una netta riduzione della sintomatologia.

Nel caso specifico sopra descritto, gli esami ematochimici e sierologici prescritti (IgG4 sieriche/C3-C4/elettroforesi proteica/CPR-VES) mostrarono un quadro del tutto nella norma, in assenza di altri segni o sintomi riferiti dalla paziente che hanno fatto maggiormente propendere verso un caso isolato di granuloma plasmacellulare non collegato al quadro patologico sopra descritto. Si imposta un follow-up semestrale in occasione delle normali visite di prevenzione odontoiatrica.

Conclusioni

Il granuloma plasmacellulare rappresenta una neoformazione estremamente rara a livello del cavo orale. Il suo corretto inquadramento permette di escludere disordini assai più gravi come nel caso delle malattie linfoproliferative e di diagnosticare eventualmente, a partire dalla manifestazione nel cavo orale, in taluni casi, una malattia molto più complessa e sistemica come la IgG4 related disease.

Implicazioni cliniche

La chirurgia delle neoformazioni del cavo orale necessita di una scrupolosa conoscenza dell'anatomia locale per evitare problematiche intra/post operatorie anche gravi. L'analisi anatomo-patologica e la sua idonea comprensione da parte del Clinico permettono di instaurare un follow-up adeguato e di giungere a remissione completa del quadro morboso nel minor tempo possibile e con la prognosi migliore.

Conflitto d'interessi

Gli Autori dichiarano di non aver alcun conflitto d'interesse

Consenso informato

La paziente è stata resa edotta e ha prestato il suo consenso al trattamento dei dati e della documentazione fotografica finalizzata a scopi didattici e di ricerca.

Finanziamenti allo studio

Nessun finanziamento è stato ricevuto per il seguente studio

Bibliografia

- 1-D'Amore F, Franchini R, Moneghini L, Lombardi N, Lodi G, Sardella A, Varoni EM. Actinomycosis of the Tongue: A Case Report and Review of Literature. *Antibiotics (Basel)*. 2020 Mar 16;9(3):124.
- 2-Lombardi N, Varoni EM, Moneghini L, Lodi G. Submucosal oral squamous cell carcinoma of the tongue. *Oral Oncol*. 2020;105:121.
- 3- Pravesh Kumar Jhingta, K. M., An Enigmatic Clinical Presentation of Plasma Cell Granuloma of the Oral Cavity. *Contemporary clinical dentistry*, 2018, 132-136.
- 4-Ide F, S. T. . Plasma cell granuloma of the oral mucosa with angiokeratomatous features: A possible analogue of cutaneous angioplasmocellular hyperplasia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*, 2000, 89:204-7.
- 5-Weilbaecher TG, S. D. Plasma cell granuloma of the tonsil. *J Surg Oncol.*, 1984, 27:228-31.
- 6-Nam BH, R. K. Plasma cell granuloma of the temporal bone: A case report. *Head Neck*. 1994, 16:457-9.
- 7-Inui M, T. T. Inflammatory pseudotumor in the submandibular region. Clinicopathologic study and review of the literature. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 1993, 76:333-7.
- 8-Toriumi DM, S. J. Plasma cell granuloma of the paranasal sinuses. *Otolaryngol Head Neck Surg.*, 1987, 96:562-4.
- 9-Soares J, N. J. Plasma cell granuloma of the tongue. Report of a case. *Histol Histopathol*, 1987; 2:199-201.
- 10-Manohar B, B. S. Plasma cell granuloma of gingiva. *J Indian Soc Periodontol.*, 2011;15:64-6.
- 11-Ellis JS, S. R. (1993). Gingival sequestration of amlodipine and amlodipine-induced gingival overgrowth. *Lancet*, 1993; 341:1102-3.
- 12-Bhandari Vishnudas, Z. S. Amlodipine induced plasma cell granuloma of the gingiva: A novel case report. *J Nat Sci Biol Med*, 2014;472-476.
- 13-Manohar B, B. S. Plasma cell granuloma of gingiva. *J Indian Soc Periodontol.*, 2011;15:64-6.
- 14-Pradal G., Sorrentino D., Lombardi N., Franchini R., Moneghini L., Varoni E. Gengivite desquamativa in paziente con malattia da IgG4. *Dental Cadmos* 2020;88(3):176-180.

15-Legatowicz-Koprowska, IgG4-related disease: why is it so important? *Cent Eur J Immunol.*;2018; 204–208.

1
2
3
4
5
6
7
8
9
10
11
12
13
14
15
16
17
18
19
20
21
22
23
24
25
26
27
28
29
30
31
32
33
34
35
36
37
38
39
40
41
42
43
44
45
46
47
48
49
50
51
52
53
54
55
56
57
58
59
60
61
62
63
64
65

Fig.1 Lesione pre-operatoria

Fig.2 Escissione chirurgica

Fig.3 Sutura

Fig.4 Pezzo anatomico prelevato

Fig. 5 Guarigione a 7 giorni

Fig.6 Guarigione a 21 giorni











