

# Baş–Boyun Bölgesinde Nadir Görülen İki Patoloji: Kimura Hastalığı ve Eozinofili ile Birlikte Giden Anjiolenfoid Hiperplazi

## Two Pathologies Rarely Seen in the Head and Neck Region: Kimura's Disease and Angiolymphoid Hyperplasia with Eosinophilia

\*Dr. Nuray BAYAR MULUK, \*\*Dr. Pınar ATASOY, \*\*\*Dr. Mukadder KOÇAK

\*Kırıkkale Üniversitesi Tıp Fakültesi KBB Anabilim Dalı

\*\*Kırıkkale Üniversitesi Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı

\*\*\*Kırıkkale Üniversitesi Tıp Fakültesi Dermatoloji Anabilim Dalı

### ÖZET

Kimura hastalığı ve eozinofili ile birlikte giden anjiolenfoid hiperplazi (ALHE), etyolojisi bilinmeyen ve sık görülmeyen hastalıklardır. Bu hastalıklar, klinik olarak, baş boyun bölgesinde kutanöz papül veya nodüllerle karakterizedirler. Baş boyun bölgesinde bu tarz lezyonların varlığında, ayırıcı tanıda bu patolojilerin de düşünülmesi gereklidir.

#### Anahtar Sözcükler

*Kimura hastalığı, eozinofili ile birlikte giden anjiolenfoid hiperplazi*

### ABSTRACT

Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia (ALHE) are an uncommon disorders of unknown aetiology. Clinically they are characterized by cutaneous papules or nodules on the head and neck. The presence of these types of lesions in the head and neck, these pathologies may also be thought during the process of differential diagnoses.

#### Keywords

*Kimura disease, angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia*

Çalışmanın Dergiye Ulaştığı Tarih: 18.08.2006 • Çalışmanın Basıma Kabul Edildiği Tarih: 13.10.2006

Yazışma Adresi

Dr. Nuray BAYAR MULUK

Birlik Mahallesi, Zirveken 2. Etap Sitesi, C-3 blok, No: 62/43 06610 Çankaya / Ankara

Tel: 0 312 4964073, 0 532 7182441 Faks: 0 318 2252819 E-posta: nbayarmuluk@yahoo.com / nurayb@hotmail.com

## KİMURA HASTALIĞI

### Tanım ve Epidemiyoloji

Kimura hastalığı, yumuşak dokunun angiolenfoproliferatif bir hastalığı olup, periferik kan eozinofili ve artmış serum IgE seviyeleri ile birlikte görülmektedir. Subkutan şişlikler, özellikle periaurikuler ve submandibuler bölgelerde görülmektedir (1).

Kimura hastalığının orijini tam olarak bilinmemekle birlikte, 1937'de ilk olarak Çin'de Kim ve Szeto tarafından tanımlanmıştır. Daha önceleri epiteloid hemangioma, atipik piyojenik granüloma veya kutanöz eozinofilik lenfollükülozis olarak belirtilmiş olup; 1948 yılında Japon literatüründe, Kimura hastalığı olarak isimlendirilmiştir. O zamandan beri de aynı isim kullanılmaktadır (2). Bu konuda çoğunlukla Japonya, Çin, Singapur ve Hong Kong'dan vaka takdimleri yayınlanmıştır. Amerika ve Avrupa Literatüründe de nadiren belirtilen vakalar mevcuttur (3). Kimura tarafından 1948'de Kimura hastalığı olarak bildirildikten sonra, daha yaygın olarak tanınmaya başlamıştır (4).

Kimura hastalığı, Asya'da Mongol ırkının bireylerinde sık görülür. Hastalık, %85 oranında erkeklerde görülmektedir. Kimura hastalığı, genç erişkinlerde görülmektedir, ortalama yaş 27-40 arasındadır ve erkeklerde daha fazla görülür (Erkek/Kadın = 5.1) (5). Subkutan kitleler, sıklıkla baş-boyun bölgesinde, özellikle parotid glandı da tutacak şekilde yerleşmiştir. Ancak literatürde parotid glandla birlikte konkomitan olarak lakrimal glandın da tutulduğu bildirilmiştir (6). Diğer tutulan bölgeler, epitrokleal, aksiller ve inguinal nodlardır. Tedavi edilmediği takdirde kitleler yavaş olarak büyür, ancak hastanın şikayetleri fazla değildir. Nadiren lokalize veya jeneralize pruritis ve subakut veya kronik dermatit oluşabilir. Cilt lezyonları tek veya multipl kırmızı-kahverengi papüller veya subkutanöz tümörler şeklinde ortaya çıkar ve genellikle çapı 2 cm veya daha büyüktür (3).

Genellikle uzun yıllar içinde oluşur. Bilateral veya birçok bölgede multipl nodüller vardır. Bu lezyonlar, subkutan ve derin yumuşak doku, major tükürük bezleri lenf nodlarında yerleşmiştir. Superfisyal dermal veya viseral tutulum nadirdir. Kimura hastalığının lezyonları, baş-boyun dışındaki bölgelerde de görülebilir (Aksilla, bacak vs.). Ek olarak sistemik bulgular, periferik eozinofili ve artmış serum IgE seviyeleri, neredeyse her vakada görülür. Kimu-

ra hastalığı, klinik ve histolojik olarak eozinofili ile birlikte giden anjiolenfoid hiperplazi (ALHE) ile karışabilir (5).

### Etyopatogenez

Kimura hastalığının sebebi bilinmemektedir. Değişik ajanlara atopik reaksiyon hipotezi, lezyonların süresi, reaktif germinal merkezlerle birlikte mast hücre hiperplazisi ve polimorfik lenfoplazmositer infiltrasyon, birlikte kan eozinofilisi ve artmış IgE seviyeleri nedeniyle ağırlık kazanmaktadır. Serum IgE seviyesinin yükselmesi ve periferik kan eozinofilisi olması dolayısı ile bazı yazarlar parazitik enfeksiyonların etyolojide rol oynadığını düşünmektedirler. Takenako, Kimura hastalığının bilinmeyen antijenlere sekonder olarak gelişen kronik allerjik ve inflamatuvar reaksiyon olduğunu ve bu allerjenin "Candida Albicans" olabileceğini bildirmiştir. Bununla birlikte bu bulgular diğer araştırmacılar tarafından doğrulanmamıştır (7).

Bir hastanın serumunda kriyoglobulinlerin bulunması (IgG, IgM, IgA) (8) ve renal hastalık ile birlikte görülmesi (9), Kimura hastalığının anormal immünolojik cevabın bir şekli olduğunu düşündürmektedir. Kimura hastalığının klasik lezyonlarının travma veya iritasyon sonucunda gelişen doku reaksiyonuna bağlı olduğu da düşünülmektedir. Ancak travma, %10'dan az hastada sebep olarak ileri sürülmüştür (10).

### Laboratuvar Tetkikleri

Periferik kan eozinofilisi ve serum IgE seviyesinin yükselmesi görülebilir (11).

### Ayırıcı Tanı

Kimura hastalığının ayırıcı tanısında eozinofilik granüloma, folliküler lenfoma, angioimmünoblastik lenfadenopati, Hodgkin hastalığı, Kaposi sarkomu, atipik piyojenik granüloma veya angiosarkom gibi hastalıkların gözönünde bulundurulması gereklidir. Bu hastalarda subkutan kitleler, lenfadenopati ve eozinofili bulunması; ve diğer doku invazyonu yapan helmantik enfeksiyonlar ve malignansinin ekarte edilmesi gereklidir. Parazitik enfeksiyonlardan subkutan kitle ve eozinofili ile seyredenler cysticercosis, sparganosis, gnathostomiasis, pentamstomiasis, difilariasis, paragonamiasis ve toxocariasis'tir (3).

Özellikle hastalığın ALHE ile ayırıcı tanısı yapılmalıdır. Ayırıcı tanıda düşünülmesi gerekli olan

diğer hastalıklar lenfoma, tükrük bezi tümörleri ve Mickulicz hastalığıdır (12).

### Tanı

Kimura hastalığının tanısı, klinik değerlendirme ve subkutan kitleden yapılan histolojik değerlendirme ile konulmaktadır. Lenf nodu biopsisinin tanıdaki katkısı daha az olmaktadır (4). Bazı vakalarda OKT<sub>4</sub>–pozitif T lenfositlerde, yüksek moleküler ağırlıklı eozinofilik kemotaktik faktör (“High-molecular weight eosinophilic chemotactic factor”, HMW–ECF) analizi de tanıda rol oynar (13). Periferik kan T<sub>4</sub> hücrelerinde spontan olarak ve uzun süreli şekilde HMW–ECF üretimi olmaktadır. Ancak normal kontrollere oranla makrofajlar veya nötrofillere karşı kemotaktik aktiviteler daha azdır (14).

### Patoloji

Patolojik olarak Kimura hastalığı, lenfoid hücrelerin folliküler yapıda proliferasyonu ve folliküller arasında inflamatuvar hücre infiltrasyonu ile karakterizedir. İnfiltrat olan inflamatuvar komponent, eozinofiller, lenfositler, plazma hücreleri ve mast hücrelerini içermektedir. Bu lezyonlarda sıklıkla belirgin fibrozis de mevcuttur. Kimura hastalığında hücre atipi hiçbir zaman görülmemiştir (4,15,16). Kimura lezyonlarında germinal merkezlerde IgE depozitleri (17), ayırıcı tanıda önemlidir.

### Tedavi

Kimura hastalığında, değişik tedavisi modalitelerinin başarı oranı farklı olmaktadır. Bu antite için kalıcı tedavi, oral kortikosteroid tedavisidir. Steroid tedavisi, sıklıkla tümör nüksüne yol açmakta; ve devam eden tedaviye rağmen tümörlerin bir kısmında steroid tedavisine cevapsızlık görülmektedir (18). İntralezyonel steroid enjeksiyonlarının başarıları iyi değildir. Lokalize lezyonlarda komple cerrahi eksizyon bir tedavi seçeneğidir. Lokal lezyonlarda Argon ve CO<sub>2</sub> lazer de başarılı şekilde kullanılmaktadır (19). Maalesef değişik tedavi seçeneklerine rağmen, hastaların belirgin bir kısmında nüks görülmektedir (%15–40), ancak fatal değildir. Malign transformasyon bildirilmemiştir. Nadiren proteinüri ve/veya nefrotik sendrom bildirilmiştir (9).

Tedaviye cevap vermeyen, dirençli lezyonlarda radyasyon tedavisi de kullanılabilir (20). Tedaviye dirençli hastalara radyasyon tedavisinin uygulandığı bir çalışmada, 19 hastadan 15’inde has-

talığın kontrol altına alınabildiği belirtilmiştir. Bununla birlikte, radyasyon tedavisinden sonra hastaların sadece %50’sinde steroid tedavisi kesilebilmektedir. Bu seride, 4 hastada radyasyon tedavisi sonrası 8–13. aylarda rekürrens ortaya çıkmıştır. Lokal kontrol için 25–30 Gy fraksiyone radyasyon tedavisi yeterlidir (20). Bununla birlikte genç hastalarda radyasyon tedavisi kullanılmamaktadır. Aynı şekilde kronik steroid tedavisinin de yan etkilerinin dikkate alınarak tedavinin planlanması gerekmektedir. Diğer tedaviler sitotoksik ajanlar, retinoik asit ve küretajdır.

Kimura hastalığı, benign bir hadisedir, uzun süreli bir hastalık olmasına rağmen hastaların toleransı iyidir. Spontan rezolüsyon da rapor edilmekle birlikte, çoğu hastada persistan eozinofili ve subkutan kitlelerde büyüme söz konusudur. Ancak hastaların malign transformasyon olmadığı konusunda rahatlatılması gereklidir.

Bu antite, özellikle Güney Doğu Asya kökenli hastalarda periferik eozinofili, rejyonel lenfadenopati ve baş–boyunda subkutan kitleler varsa, ayırıcı tanıda mutlaka düşünülmelidir.

### EOZİNOFİLİ İLE BİRLİKTE GİDEN ANJİOLENFOİD HİPERPLAZİ (ALHE)

ALHE, ilk olarak 1969’da tarif edilmiştir ve Kimura hastalığına benzer bir antitedir. ALHE, yaşlı kişilerde ve predominant olarak kadınlarda görülen, intradermal lezyonları olan bir hastalıktır. ALHE sıklıkla batı dünyasının insanlarında görülmektedir.

Kimura hastalığının ayırıcı tanısında mutlaka düşünülmesi gereken bir antitedir. ALHE’de lezyonlar, baş–boyun bölgesinde, küçük eritematöz dermal papül veya nodüllerden oluşur. Bu lezyonlar kaşınır ve kolaylıkla kanarlar. Genellikle lenfadenopati yoktur, periferik eozinofili daha az görülür (%20’den az vakada).

Kimura hastalığı ve ALHE’nin karakteristik özellikleri Tablo 1’de özetlenmiştir (21).

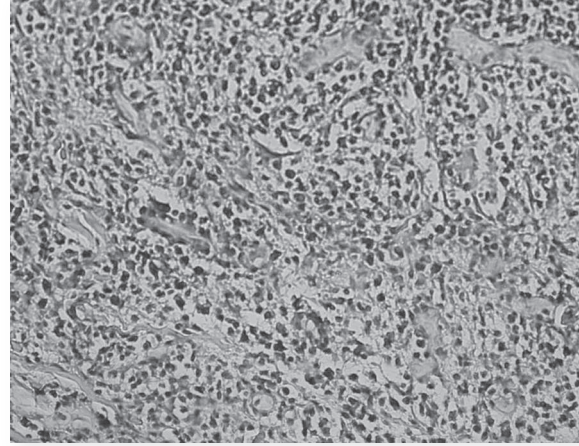
Klinik olarak Kimura hastalığı genç erkeklerde derin yerleşimli nodül, lenfadenopati, periferik kanda eozinofili ve serum IgE seviyesinin yükselmesi şeklinde görülür. ALHE’de ise eritematöz–kahverengi, multipl papül ve nodüller vardır. Beraberinde lenfadenopati ve periferik kanda eozinofili yoktur. Serum IgE seviyesi genellikle normaldir.

**Tablo 1.** ALHE ve Kimura Hastalığı'nın önemli klinik ve histolojik farklılıkları

| ALHE                           | Kimura Hastalığı             |
|--------------------------------|------------------------------|
| <b>KLİNİK</b>                  |                              |
| Orta yaşlı kadın               | Genç erkek                   |
| Baş-boyunda predominant        | Generalize                   |
| Dermal papüller                | Subkutan kitle               |
| Şiddetli pruritis olabilir     | Semptom yok                  |
| Lenf nodu tutulumu yok         | Lenf nodu tutulumu var       |
| Normal serum IgE               | Artmış serum IgE             |
| <b>HİSTOLOJİ</b>               |                              |
| Dermis, subkutanöz             | Subkutanöz, kas              |
| Diffüz infiltrasyon            | Nodüler infiltrasyon         |
| Germinal merkez sık görülmez   | Germinal merkez sık görülür  |
| Minimal fibrozis               | Belirgin fibrozis            |
| Belirgin endotelial değişiklik | Tespit edilemeyen değişiklik |

Histopatolojik olarak iki hastalıkta da benzer bulgular olmakla birlikte, farklı yanları şunlardır: Kimura hastalığında düzgün oluşmuş lenfoid follikül ve belirgin eozinofil infiltrasyonu bulunabilir, fakat epiteloid veya histositoid endotelial hücre değişiklikleri ALHE'deki kadar belirgin değildir. ALHE'de ise belirgin endotelial hücre değişiklikleri vardır; lenfoid folliküller ise nadir bulgulardır (%5) (21).

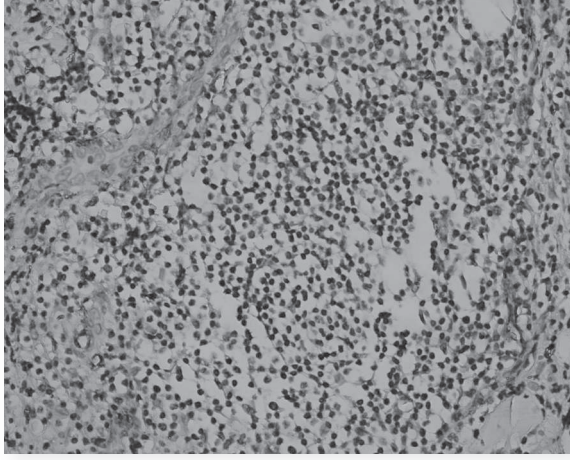
ALHE, kapiller damarların aşırı proliferasyonu ve irregüler lümenler ile karakterizedir. Endotelial hücreler şişkindir ve vakuollü sitoplazma içermektedir. Kimura hastalığına benzer şekilde belirgin inflamatuvar infiltrat mevcuttur. Bununla birlikte, inflamatuvar infiltrata eşlik eden lenfositler, germinal merkezler şeklinde düzenli değildir. İki hastalığın ayırımında kullanılan diğer bir kriter de Kimura hastalığında histositoid endotelial hücrelerin olmamasıdır (3). Ayırıcı tanıda, Kimura hastalığında inflamatuvar infiltrat ve büyük endotelial venüllerin proliferasyonu görülür. Venüllerin dar lümenası ALHE'deki kanalize olmayan endotelial hücre kordonları ile kolaylıkla ayrılabilir. ALHE, epiteloid hemangiom olarak da bilinir ve endotelial hücreler çift sıradır ve dar sitoplazmalıdır (Resim 1, 2).



**Resim 1.** Yoğun eozinofil ve mononükleer iltihap hücrelerinden oluşan sahada şişkin endotelle döşeli damarlar izlenmektedir (H-E: x 100) (Patoloji Bölümü arşivindedir).

Kimura hastalığında, lenfoid folliküller Leu22 ve UCHL-1 (T hücreler) ile pozitif boyanan periferik zonlar ve L-26 ekspres eden santral lenfosit agregasyonu (B hücreler) ile oluşmuştur. ALHE'de immunohistokimyasal olarak değişik yapılar mevcut-





**Resim 2.** Damar duvarındaki düz kasta immünohistokimyasal olarak SMA (smooth muscle actin) pozitifliği izlenmektedir (SMA; X100) (Patoloji Bölümü arşivindedir).

tur, ancak bu vakalarda lenfoid folliküllerin yapısı Kimura hastalığındaki lenfoid folliküllere benzerdir.

İnfiltrate olan hücreler, ALHE’de esas olarak CD3+/CD4+ “helper” lenfositlerdir (%50); ve %30 oranında da damar duvarlarına yakın yerleşimli ve yüzey IgE’ye pozitif cevap veren yüzey IgE’ye pozitifdir (18). Kimura hastalığında ise yüzey IgE pozitif hücreler, belirgin olarak lenfoid folliküllerin merkezinde bulunurlar (12). Folliküler dendritik hücrelere (FDC5) karşı monoklonal antikolar, germinal merkezlerde “light” zonda, diffüz şekilde yerleşirler. FDC’ler antijen prezente eden hücrelerdir, B

hücrelere bağlanırlar ve germinal merkezlerin karakteristik elemanlarıdır. Bu hücreler spesifik IgG ve E cevaplarının indüksiyonunda kritik hücrelerdir (22). Bu bulgular, iki hastalığın da ani alerjik reaksiyonlar sonucunda oluşabileceği hipotezini düşündürmektedir.

ALHE patogenezi bilinmemektedir. ALHE’nin ani gelişimli hipersensitivite reaksiyonu olduğu veya immünolojik, travmatik veya malformasyon sonrası gelişen vasküler hasara bağlı olarak oluşan reaktif, vasküler hadise olduğu ileri sürülmüştür (23). ALHE’nin östrojene bağlı bir tümör olduğu düşünülmüştür, çünkü bu lezyonlarda östrojen reseptörleri vardır (24). Histogenetik hipotezlerin hiçbiri infiltrattaki eozinofillerin rolünü açıklamamaktadır. Bazı yazarlar, eozinofillerin ALHE gelişimi için kritik olduğunu ve bu hücrelerden salgılanan katyonik eozinofil proteinlerinin angiogenezi stimüle ettiğini ileri sürmüşlerdir (2).

ALHE’de kutanöz lezyonlarda spontan remisyonlar bazen görülmekle birlikte (25), oral ALHE’de sadece 1 vakada gözlenmiştir (26). Cerrahi eksizezyon oral ALHE’de %81 vakada uygulanmıştır ve lokal nüksler %19 vakada görülmüştür. Nüksler re–eksizezyon, oral kortikosteroidler (parsiyel cevap) ve vinblastine (2) ile tedavi edilmiştir. Oral ALHE’de diğer tedavi yaklaşımları lazer koterizasyon, kriyoterapi, intralezyonel kortikosteroidler, oral retinoidler ve pentoksifyline’dir.

Baş–boyun bölgesinde, neoplastik hadiseleri düşündürülen kitle veya nodüler lezyon varlığında, ayırıcı tanıda Kimura hastalığı ve ALHE’nin düşünülmesi gereklidir.

## KAYNAKLAR

1. Pamaraju N, Khalifa SA, Darwish A, Paulose KO, Ahmed N, Yousif H. Kimura’s disease. *J Laryngol Otol.* 1996; 110: 1084–1087.
2. Kimura T, Yoshimura S, Ishikawa E. Unusual granulomata combined with hyperplastic change in lymphatic tissue. *Trans Soc Pathol Jpn.* 1948; 13: 179–180.
3. Irish JC, Kain K, keystone JS, Gullane PJ, Dardick I. Kimura’s Disease: An unusual cause of head and neck masses. *The Journal of Otolaryngology.* 1994; 23 (2): 88–91.
4. Kung ITM, Gibson JB, Bannatyne PM. Kimura’s disease: a clinicopathological study of 21 cases and its distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Pathology.* 1984; 16: 39–44.
5. Chan JKC, Hui PK, Yuen NWF, Kung ITM, Gwi E. Epitheloid haemangioma (angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia) and Kimura’s disease in Chinese. *Histopathology.* 1989; 15: 557–574.
6. Cook HT, Stafford ND. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia involving the lacrimal gland: case report. *Br J Ophthalmol.* 1988; 72: 710–712.
7. Nelson DA, Jarratt R. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Pediatr Dermatol.* 1984; 1: 210–214.
8. Grimwood R, Swinehart JM, Aeling JL. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Archives of Pathology.* 1979; 115: 205–207.

9. Yamada A, Mitsunashi K, Miyakawa Y. Membranous glomerulonephritis associated with eosinophilic lymphofolliculosis of the skin (Kimura's disease) –A report of a case and review of the literature. *Clinical Nephrology*. 1982; 18: 211–215.
10. Oslen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia, A clinical pathological study of 116 patients. *Journal of American Academy of Dermatologists*. 1985; 12: 781–796.
11. Okudaira H, Hongo O, Ogita T, Haida M, Yamauchi N, Miyamoto T. Serum IgE and IgE antibody levels in patients with bronchial asthma, atopic dermatitis, eosinophilic granulomas of soft tissue (Kimura's Disease), and other diseases. *Ann Allergy*. 1983; 50: 51–54.
12. Kou T-T, Shin L-Y, Chan H-L. Kimura's disease: Involvement of regional lymph nodes and distinction from angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Am J Surg Pathol*. 1988; 12: 843–854.
13. Hirashima M, Sakata K, Tashiro K, Ohmori J, Iyama K, Tsuda H, et al. Spontaneous production of eosinophil chemotactic factors by T lymphocytes from patients with subcutaneous angioblastic lymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Clin Immunol Immunopathol*. 1986; 39: 231–241.
14. Reid RJ, Terazakis N. Subcutaneous angioblastic lymphoid hyperplasia with eosinophilia (Kimura's disease). *Cancer*. 1972; 29: 489–497.
15. Googe DB, Harris NL, Mihm MCJr. Kimura's disease and angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia: two distinct histopathological entities. *Journal of Cutaneous Pathology*. 1987; 14: 263–271.
16. Chan MKM, McGuire LJ. Cytodiagnosis of lesions presenting as salivary gland swellings—A report of seven cases. *Diagnostic Cytopathology*. 1992; 8: 439–443.
17. Ishikawa E, Tanaka H, Katimoto S. A pathological study on eosinophilic lymphofolliculoid granuloma (Kimura's disease). *Acta Pathologica Japonica*. 1981; 31: 767–781.
18. Hui PK, Chan YW. Kimura's disease—treatment with steroid. *Histopathology*. 1990; 17: 286–287.
19. Vallis RC, Davies DG. Angiolymphoid hyperplasia of the head and neck. *J Laryngol Otol*. 1988; 102: 100–101.
20. Itami J, Arimizu N, Miyoshi T, Ogata H, Miura K. Radiation therapy in Kimura's disease. *Acta Oncol*. 1989; 28: 511–514.
21. Chung TS, Kim DK, Yoon MS, Yang WI. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia showing characteristics of Kimura's Disease. *The Journal of Dermatology*. 2000; 27: 27–30.
22. Tew JG, Wu J, Oin D, Helm S, Burton GF, Szah, kal AK. Follicular dendritic cells and presentation of antigen and costimulatory signals to B cells. *Immunol Revi*. 1997; 156: 39–52.
23. Bartralot R, Garcia-Patos V, Hueto J, Huguet P, Raspall G, Castells A. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia affecting the oral mucosa: report of a case and review of the literature. *British Journal of Dermatology*. 1996; 134: 744–748.
24. Moy RL, Luftman DB, Nguyen QH, Amenta JS. Estrogen receptors and the response to sex hormones in angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *Arch Dermatol*. 1992; 128: 825–828.
25. Olsen TG, Helwig EB. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia. *J Am Acad Dermatol*. 1985; 12: 781–796.
26. Razquin S, Mayayo E, Citores MA, Alvira R. Angiolymphoid hyperplasia with eosinophilia of the tongue: report of a case and review of the literature. *Hum Pathol*. 1991; 22: 837–839.