

CASOS CLÍNICOS

Xantoma verruciforme en pene asociado a liquen escleroatrófico: Primer reporte de caso a nivel mundial y revisión de literatura

Verruciform xanthoma in penis associated with lichen sclerosus et atrophicus: First case report worldwide and literature review

Manuel Moreno¹, Zaida Gutiérrez², Florencio Cortez², Sergio Rodríguez², Dina Carayhua³

RESUMEN

El xantoma verruciforme es una rara lesión benigna, caracterizada por la presencia de células xantomatosas en dermis papilar, que se presenta mayoritariamente en mucosa oral. Son menos de 20 los casos reportados a nivel mundial de xantoma verruciforme localizado en pene, y si bien se ha descrito su asociación con diversas dermatosis como liquen plano, carcinoma epidermoide, nevus epidérmicos, entre otras, hasta ahora no ha sido descrita su asociación con liquen escleroatrófico. Siendo así este reporte, el primero de xantoma verruciforme en pene asociado a Liquen escleroatrófico.

Palabras clave: Xantoma verruciforme, Liquen escleroso y atrófico, Liquen escleroatrófico.

SUMMARY

Verruciform xanthoma is a rare, benign lesion, characterized by the presence of xanthomatous cells in papillar dermis, which occurs mostly in oral mucosa. There are less than 20 cases reported worldwide about verruciform xanthoma localized in penis; and although it has been associated to dermatoses such as lichen planus, squamous cell carcinoma, epithelial nevus, and others; its association to Lichen esclerosus et atrophicus has not been described until now. This is the first report of verruciform xanthoma in penis associated to lichen esclerosus et atrophicus.

Key words: Verruciform xanthoma, Lichen esclerosus et atrophicus.

INTRODUCCIÓN

El xantoma verruciforme (XV) es una rara lesión, benigna y de etiología desconocida¹⁻³, caracterizada por proliferación de histiocitos ricos en lípidos en dermis papilar⁴, que afecta principalmente a varones adultos⁵⁻⁷. De los más de 200 casos reportados en la literatura, la mayoría se localiza en mucosa oral; los pocos casos extraorales incluyen básicamente la piel anogenital¹⁻² (a predominio de escroto), siendo menos de 20 aquéllos localizados en pene. Aunque existen asociaciones descritas con pénfigo vulgar, epidermolísis bulosa, liquen plano, lupus discoide, carcinoma epidermoide, entre otras^{2,8-10}, hasta ahora no se ha descrito asociación con liquen escleroatrófico. El presente

artículo reporta el primer caso a nivel mundial de xantoma verruciforme en pene asociado a liquen escleroatrófico.

CASO CLÍNICO

Varón de 63 años procedente del Callao, con antecedente de diabetes mellitus, hipertensión arterial y dislipidemia desde hace dos años, en tratamiento con metformina y enalapril. Inicia cuadro, nueve meses antes, con la aparición de una pápula amarillenta en prepucio, de lento crecimiento y asintomática, no refiere otras lesiones. Al examen físico se observa en piel una placa verrucosa, amarillenta, indurada, no dolorosa, de 3x1.8x0.5cm, ubicada en prepucio, además de

¹ Médico Residente Dermatología. Universidad Nacional Mayor de San Marcos. Hospital Nacional Daniel A Carrión. Callao, Perú.

² Médico Asistente Dermatología. Hospital Nacional Daniel A Carrión. Callao, Perú.

³ Médico Asistente Anatomía-Patológica. Hospital Nacional Daniel A Carrión. Callao, Perú.
Correo electrónico: mmoreno_md@yahoo.com

una placa hipopigmentada, que había pasado desapercibida para el paciente, aplanada, de 7x6cm aproximadamente, ubicada en prepucio y glande, rodeando a la lesión verrucosa (**Fotografía 1**). Se realiza biopsia de piel, observándose en la lesión verrucosa, hiperplasia epidérmica, hiperqueratosis, neutrófilos en epidermis a predominio de capa córnea, con elongación de crestas y papilas dérmicas infiltradas por células xantomatosas (**Fotografías 2, 3 y 4**). En la biopsia de la placa hipopigmentada se encontró una epidermis adelgazada, con leve hiperqueratosis, hipergranulosis, degeneración vacuolar de capa basal, cuerpos apoptóticos presentes, la dermis superficial con infiltrado linfoplasmocitario en banda, fibrosis y dilatación de vasos sanguíneos (**Fotografías 5, 6 y 7**). En los exámenes de laboratorio se reportó una glicemia de 221mg/dl, colesterol total de 210mg/dl, HDL en 54mg/dl, LDL

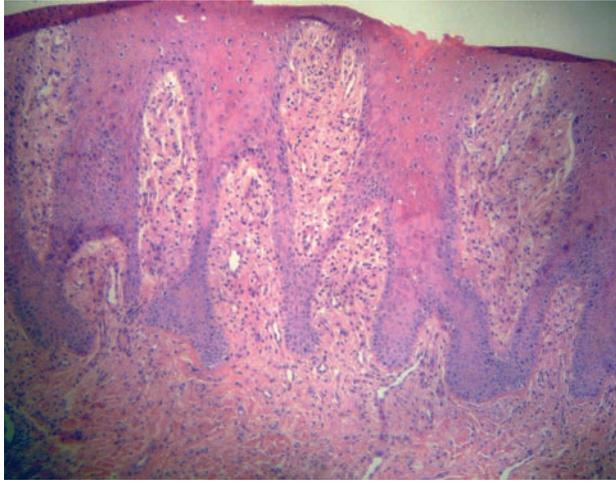
121mg/dl y triglicéridos en 171mg/dl. Los resultados del perfil hepático, urea, creatinina y el examen completo de orina fueron normales; el VDRL y ELISA VIH dieron no reactivos.

DISCUSIÓN

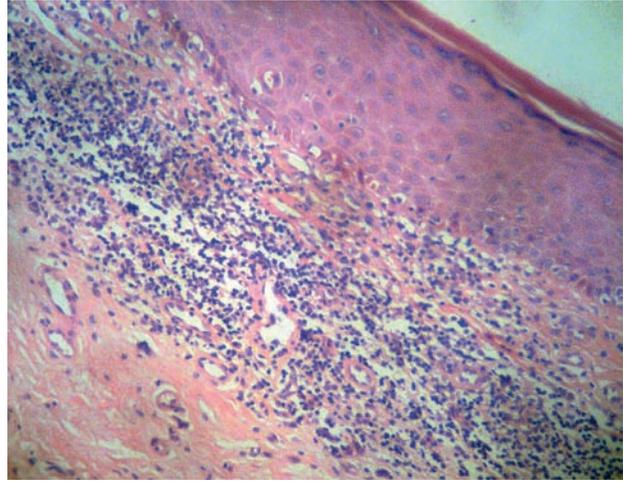
En 1971, Schafer describió 15 casos de lesión única con superficie verrucosa en cavidad oral, a la que denominó xantoma verruciforme¹¹. Posteriormente, muchos casos han sido reportados; haciendo del XV una entidad clínico-patológica distintiva, benigna, rara, de etiología incierta¹⁻³, de lento crecimiento y asintomática³, que ocurre principalmente en mucosa oral¹⁻³. La ocurrencia cutánea (extramucosa) es mucho más rara, el primer caso extraoral fue reportado en 1979 por Santa Cruz¹². Los agregados de células xantomatosas



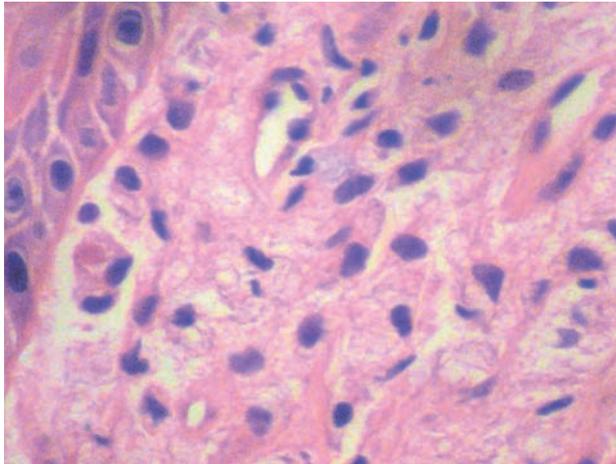
Fotografía 1. Distintas tomas (A, B, C, D) en las que se aprecia placa amarillenta, de superficie verrucosa, y bordes irregulares, pero definidos, ubicada en prepucio. Además, placa hipopigmentada, atrófica, localizada en tronco de pene, prepucio y glande, rodeando a la anterior.



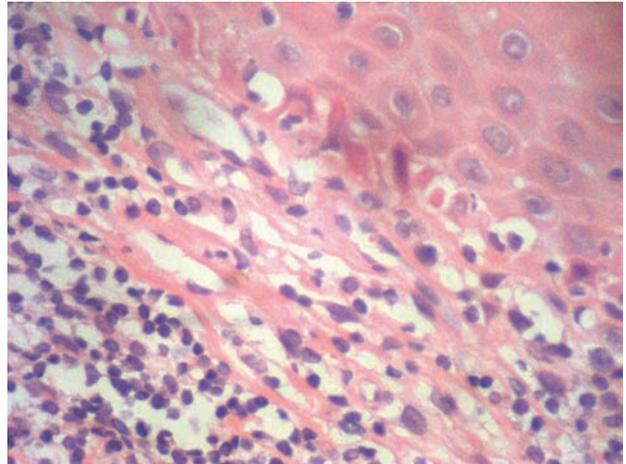
Fotografía 2. Hiperplasia epidérmica con elongación de las crestas hacia dermis. HE 10X.



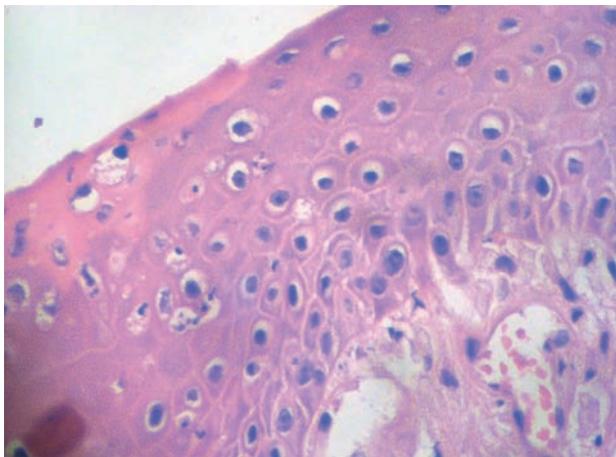
Fotografía 5. Epidermis adelgazada, leve hiperqueratosis, hipergranulosis. HE 10X.



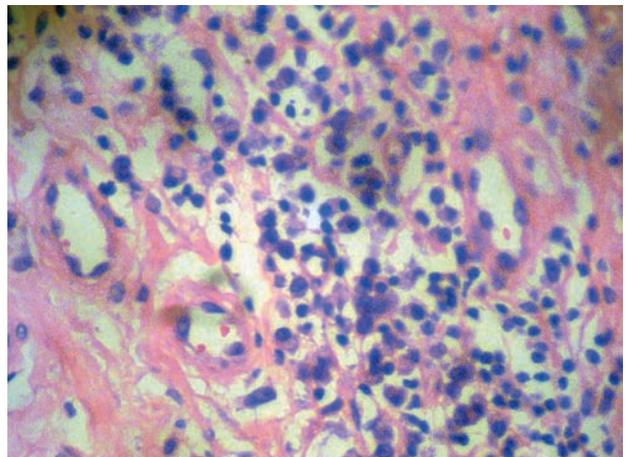
Fotografía 3. Papilas dérmicas infiltradas por células xantomatosas. HE 40X.



Fotografía 6. Degeneración vacuolar de capa basal, cuerpos apoptóticos presentes. HE 40X.



Fotografía 4. Neutrófilos en epidermis a predominio capa córnea. HE 40X.



Fotografía 7. Dermis superficial con infiltrado linfoplasmocitario en banda, fibrosis, y dilatación de vasos sanguíneos. HE 40X.

en estroma submucoso o dermis papilar en asociación con hiperplasia epitelial son típicos de esta lesión^{1,4}.

Epidemiológicamente, el xantoma verruciforme es una lesión poco común, presentada mayormente en varones (55 hasta 100% de casos según diversos estudios)^{1,5-7}. El rango de edad de los pacientes es muy amplio, de 18 a 79 años⁵, fluctuando la edad promedio entre 44 y 55 años y siendo la edad promedio de los varones mayor a la de mujeres^{1,5,7}. Su etiopatogenia es aún incierta; las teorías son diversas, entre ellas la asociada a infección por papilomavirus, debido a similitud clínica y a su localización¹⁰, ésta en especial ha demostrado ser falible ya que en casi todos los estudios excepto en uno (un solo caso localizado en escroto¹³), las técnicas de hibridación *in situ*, inmunohistoquímica, reacción en cadena de la polimerasa, análisis de Southern Blot, microscopía electrónica entre otras, han fallado en demostrar la presencia de partículas virales o ADN viral^{1,14-18}. La explicación más aceptada, aquella postulada por Mohsin y col.¹, señala que el evento inicial es un daño a los queratinocitos por algún agente desconocido, el cual activaría la producción de citoquinas quimiotácticas; los neutrófilos atraídos acelerarían la degradación de los queratinocitos alterados, con movilización subsecuente a dermis, donde serían fagocitados por células dendríticas, las que perderían entonces sus procesos dendríticos, cambiarían su conformación y se transformarían en células xantomatosas, postulándose así la naturaleza reactiva de esta lesión¹. Esto también explicaría el por qué estas células dendríticas no teñirían para factor XIIIa, KP1, y Mac3871, pruebas usualmente positivas en células dendríticas, y sí teñirían para CD68, explicando así su linaje monocito-macrófago¹⁵. Respecto a la dislipidemia, la mayoría de pacientes con xantoma verruciforme no presentan hiperlipidemia^{1,10}; a diferencia del caso presentado que cursó con leve dislipidemia.

Clínicamente, el xantoma verruciforme es una lesión sésil o pediculada⁶, descrita como verrucosa, papilomatosa, ulcerada o aplanada², con tres tipos de configuración: superficie plana, papular-verrucosa, o quística-crateriforme¹, amarillenta o marrónácea, de tamaño variable (de 0.2 a 2cm en promedio^{2,3,5,8} aunque se ha descrito un caso de hasta 7x5cm¹⁹), asintomática^{2,8}, de lento crecimiento¹, muy pocos autores han reportado la ocurrencia de lesiones múltiples^{19,20}. La amplia mayoría de casos reportados han sido localizados en cavidad oral (mucosos)^{1,2,10,20}; de ellos, la ubicación más frecuente es gingival⁵⁻⁸, seguida de lengua, mucosa oral y vestibular⁵. Los casos cutáneos (extraorales) son raros²⁰, ocurriendo predominantemente en piel anogenital (vulva, pene, escroto y ano)^{1,2,10}. Otros sitios reportados incluyen orejas, nariz, dedos, mano de extremidad focomélica y axila^{2,8,10}. Del total de casos ubicados en genitales masculinos, la mayoría corresponde a escroto, así en una revisión japonesa de 118 casos de XV (incluyendo cuadros orales) más de 40 lesiones fueron escrotales⁹, en tanto que sólo uno se localizó en pene^{9,21}; de allí que los casos de xantoma

verruciforme en pene (como el ilustrado) constituyan realmente una rareza. Así desde su descubrimiento, durante tres décadas y media, sólo se han descrito menos de 20 casos de XV en pene; siendo su diagnóstico importante al poder simular un carcinoma verrucoso o un carcinoma epidermoide invasivo⁸, siendo el reconocimiento clínico y estudio histopatológico vitales para su diferenciación⁸, a fin de evitar procedimiento quirúrgicos agresivos innecesarios. En el Cuadro 1, adaptado de Cuzzo y col.⁸ se aprecian algunas de las características de 11 de estos casos²²⁻³⁰.

El diagnóstico diferencial a considerar depende de la localización, incluye al condiloma acuminado, verruga vulgar, leucoplaquia, queratosis seborreica, condiloma lata, otros xantomatosas, carcinoma verrucoso, carcinoma epidermoide, y enfermedad de Bowen^{2,3,8,9}, debiendo asimismo descartar su asociación con carcinoma epidermoide en casos ubicados en pene, lo cual ha sido descrito⁹. Es necesario tener presente que aunque xantoma verruciforme no está usualmente asociado a otras lesiones o anormalidades metabólicas¹⁰, puede asociarse a otros desórdenes cutáneos como liquen plano, lupus discoide, nevus epidérmico, nevus epidérmico inflamatorio lineal, pénfigo vulgar, epidermolisis bulosa distrófica recesiva, hemangioma, carcinoma epidermoide, queratosis actínica displasia epitelial pólipo fibroepitelial^{2,5,8-10,17,31-35}; la presencia de tales desórdenes cutáneos apoyaría la patogenia del XV como proceso reactivo^{2,32}, por lo que podría indicar otro desorden cutáneo subyacente². En la literatura, hasta ahora no había sido descrita la asociación de xantoma verruciforme con liquen escleroatrófico, siendo el presente caso el primero a nivel mundial, al confirmar ambos diagnósticos clínica e histopatológicamente. Nuestro reporte cobra aún más importancia al considerar que son menos de 20 los casos descritos a nivel mundial de xantoma verruciforme localizado en pene.

El estudio histopatológico es imprescindible para el diagnóstico definitivo de xantoma verruciforme⁸. Las características histopatológicas son distintivas: acantosis (sin atipia) con elongación uniforme de crestas epidérmicas, células xantomatosas localizadas y típicamente confinadas en dermis papilar (o submucosa) entre las elongaciones de las crestas^{1-3,8,32}. Las células xantomatosas presentan numerosas vacuolas grandes y pequeñas, conteniendo lípidos⁸. También puede encontrarse hiperqueratosis con paraqueratosis frecuentemente con un infiltrado neutrofilico³², de intensidad variable entre células paraqueratóticas y entre queratinocitos, cerca a la superficie epidérmica^{1,8}, papilomatosis (si la configuración es verrucosa), dermis papilar altamente vascularizada¹ con ectasia vascular⁸ y un infiltrado inflamatorio crónico leve de predominio linfocitario⁸. Esta histopatología resulta entonces completamente distinta de la correspondiente a otras lesiones planteadas en el diagnóstico diferencial clínico, así se distingue de xantomatosas asociados a hiperlipoproteinemia, donde las células xantomatosas se ubican en dermis media¹;

de condiloma acuminado y verruga vulgar, que presentan vacuolización citoplasmática (coilocitosis) en el estrato de Malpighi; de condiloma lata, donde hay un denso infiltrado perivascular con abundantes plasmocitos; de queratosis seborreica, donde existe una mezcla de células basaloides y escamosas en epidermis acantótica además de demarcación aguda de su base; de neoplasias malignas anogenitales que carecen de células xantomatosas, como carcinoma verrucoso, que penetra profundamente con grandes proliferaciones epidérmicas, bulbosas, bien diferenciadas; enfermedad de Bowen y carcinoma epidermoide, que muestran atipia epidérmica marcada con invasión profunda en el último⁸. A la histoquímica, las células xantomatosas muestran una débil tinción con ácido peryódico de Schiff (PAS)⁸. En tanto,

orales, la exéresis es generalmente curativa^{37,38}; esta clara efectividad de la biopsia escisional o escisión quirúrgica¹⁹ también ha sido demostrada ante lesiones cutáneas en distintos reportes de lesiones extraorales^{22,39}, entre los que se incluyen algunos XV ubicados en pene^{8,22-24,27,29,30,39}, como se ilustra en el **Cuadro 1**, en los que no se presentó recurrencia tras periodos de observación tan largos como 30 meses³⁰. Otros métodos de tratamiento efectivos descritos son la biopsia shave⁸ y curetaje con electrodissección⁴⁰, entre los no efectivos figuran la electrosección con asa, laser de tinte pulsado (585nm, 0.45ms, 8J/cm cuadrados, 7mm beam diámetro), terapia de radiación (2600cGy en 13 dosis a lo largo de 18 días)¹⁹ y curación con cloroxlylenol 3% y cocamidopropyl PG-dimonium cloruro fosfato 3%¹⁹.

Cuadro 1. Características clínicas de xantomas verruciformes en pene⁸

Referencia	Raza	Edad	Duración	Tamaño(cm.)	Ubicación	Recurrencia	Tratamiento	Lípidos
Kraemer col. ²²	Blanca	22	3 meses	2.5 x 1.75	Foreskin	Ninguna/1mes	Amplia excisión antes del Dx	—
Geiss col. ²³	Blanca	39	6 meses	1.5 x 1.5	Glande	Ninguna/1año	Excisión saucerized	DLN
Ronan col. ²⁴	Blanca	29	?	2.4	Surco	Ninguna/semanas	Excisión en circuncisión	—
Balus col. ²⁵	Blanca	64	?	1.5 x 2.0	Surco	No establecido	NE	—
Lonsdale ²⁶		44	1 año	0.8	Shaft	No establecido	Excisión	—
	Blanca	66	2 años	—	Prepucio	No establecido	Excisión parcial,no tratamiento	—
Amantea col. ²⁷	Blanca	64	2 años	1.5 x 2.0	Surco	Ninguna/2años	Excisión	DLN
George y Azadeh ²⁸	India	33	25 años	—	Prepucio	No establecido	Ninguno	DLN
LagunaUrraca col. ²⁹		28	5 años	1.5	Glande	Ninguna	Excisión simple	DLN
Pellice col. ³⁰		67	? meses	1.0	Glande	Ninguna/30meses	Excisión	—
Cuozzo col. ⁸	Negra	28	2 semanas	1.5 x 0.5	Shaft	Ninguna/1año	Excisión shave toda la lesión	DLN

la inmunohistoquímica, revela positividad para CD68 (KP1) y vimentina^{7,14}, y negatividad para S-100, citoqueratina y factor XIIIa14. MMP2 y MMP-9 muestran tinción positiva en células epidérmicas y también en células xantomatosas¹⁴.

El pronóstico del XV es bueno, tiene un curso benigno⁸, usualmente no asociado a recurrencias post exéresis, las recurrencias son raras^{3,8,19}. Casos de regresión espontánea también han sido descritos³⁶. Respecto al tratamiento, la literatura sugiere ampliamente que la simple escisión de xantomas verruciformes orales es curativa^{37,38}; desafortunadamente, reportes con comentarios específicos acerca del tratamiento de lesiones cutáneas son escasos¹⁹. Así ante lesiones pequeñas (menores de 2cm), principalmente

CONCLUSIONES

El xantoma verruciforme es predominantemente una lesión oral, son poco comunes los casos cutáneos, existiendo menos de 20 reportes (además del presente) de XV ubicados en pene a nivel mundial, de allí parte de la importancia de este caso. Asimismo, en la literatura no se había asociado hasta ahora el xantoma a liquen escleroatrófico, tal como hemos ilustrado en el presente reporte: xantoma verruciforme en pene asociado a liquen escleroatrófico, esta asociación es la primera descrita a nivel mundial, logrando así una mayor relevancia.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. MOHSIN S, LEE MW, AMIN MB, STOLER MH, EYZAGUIRRE E, CHAN K, col.. Cutaneous Verruciform Xanthoma: A Report of Five Cases Investigating the Etiology and Nature of Xanthomatous Cells. *Am J Surg Pathol*. 1998; 22(4):479-487.
2. MANNES K, DEKLE C, REQUENA L, SANGUEZA O. Verruciform Xanthoma Associated With Squamous Cell Carcinoma. *Am J Dermatopathol*. 1999;21(1):66-69.
3. RHINOW K, KALZ S, GELDERBLUM R, REICHAART A. Verruciform xanthoma. *Mund Kiefer Gesichtschir*. 2003;7(1):52-5.
4. REICH O, REGAUER S. Recurrent Verruciform Xanthoma of the Vulva. *Int J Gynecol Pathol*. 2004; 23(1):75-77.
5. YU CH, TSAI T, WANG JT, LIU BY, WANG YP, SUN A, col.. Oral Verruciform Xanthoma: A Clinicopathologic Study of 15 Cases. *J Formos Med Assoc*. 2007;106(2):141-7.
6. PHILIPSEN HP, REICHAART PA, TAKATA T, OGAWA I. Verruciform xanthoma--biological profile of 282 oral lesions based on a literature survey with nine new cases from Japan. *Oral Oncol*. 2003;39(4):325-36.
7. OLIVEIRA PT, JAEGER RG, CABRAL LA, CARVALHO YR, COSTA AL, JAEGER MM. Verruciform xanthoma of the oral mucosa. Report of four cases and a review of the literature. *Oral Oncol*. 2001;37(3):326-31
8. CUOZZO DW, VACHHER P, SAU P, FRISHBERG DP, JAMES WD. Verruciform Xanthoma: A Benign Penile Growth. *J Urol*. 1995;153(5):1625-27.
9. TAKIWAKI H, YOKOTA M, AHSAN K, YOKOTA K, KUROKAWA Y, OGAWA I. Squamous Cell Carcinoma Associated with Verruciform Xanthoma of the Penis. *Am J Dermatopathol*. 1996;18(5):551-554.
10. KISHIMOTO S, TAKENAKA H, SHIBAGAKI R, NAGATA M, YASUNO H. Verruciform xanthoma in association with a vulval fibroepithelial polyp. *Br J Dermatol*. 1997;137(5):816-820.
11. SHAFER WG. Verruciform xanthoma. *Oral Surg* 1971;31:784-9.
12. SANTA CRUZ DJ, MARTIN SA. Verruciform xanthoma of the vulva:report of two cases. *Am J Clin Pathol*. 1979;71:224-8.
13. KHASKHELY NM, UEZATO H, KAMIYAMA T, MARUNO M, KARIYA K, OSHIRO M, col.. Association of Human Papillomavirus Type 6 with a Verruciform Xanthoma. *Am J Dermatopathol*. 2000;22(5):447-52.
14. HU JA, LI Y, LI S. Verruciform xanthoma of the oral cavity: clinicopathological study relating to pathogenesis. Report of three cases. *APMIS*. 2005;113(9):629-34.
15. HU JA, LI YN, LI SY, YING H. Study of the clinicopathology on verruciform xanthoma of the oral cavity. *Shanghai Kou Qiang Yi Xue*. 2005;14(4):370-3.
16. AGARWAL-ANTAL N, ZIMMERMANN J, SCHOLZ T, NOYES RD, LEACHMAN SA. A giant verruciform xanthoma. *J Cutan Pathol*. 2002;29(2):119-24.
17. JENSEN JL, LIAO SY, JEFFES E. Verruciform Xanthoma of the Ear with Coexisting Epidermal Dysplasia. *A J Dermatopathol*. 1992;14(5):426-30.
18. ZEGARELLI DJ, ZEGARELLI-SCHMIDT EC, ZEGARELLI EV. Verruciform xanthoma. A clinical, light microscopic and electron microscopic study of two cases. *Oral Surg*. 1974;38:725-34.
19. CONNOLLY SB, LEWIS EJ, LINDHOLM JS, ZELICKSON BD, ZACHARY CB, TOPE WD. Management of cutaneous verruciform xanthoma. *J Am Acad Dermatol*. 2000;42:343-7.
20. SIBAUD V, MARIT G, DEMINIÈRE C, CAMPANA F, TAIEB A, FRICAÏN JC. Multiple verruciform xanthomas of the oral mucosa associated with graft versus host disease. *Ann Dermatol Venereol*. 2006;133(12):995-9.
21. KOSUGE A, UEKI U, MURATA S, col.. A case of verruciform xanthoma of the penis. *Jpn J Clin Dermatol*. 1994;48:175-8.
22. KRAEMER BB, SCHMIDT WA, FOUCAR E, ROSEN T. Verruciform xanthoma of the penis. *Arch Dermatol*. 1981;117:516-8.
23. GEISS DF, DEL ROSSO JQ, MURPHY J. Verruciform xanthoma of the glans penis: a benign clinical simulant of genital malignancy. *Cutis*. 1993;51:369.
24. RONAN SG, BOLANO J, MANALIGOD JR. Verruciform xanthoma of penis. Light and electron-microscopic study. *Urology*. 1984;23:600.
25. BALUS S, BREATHNACH AS, O'GRADY AJ. Ultrastructural observations on 'foam cells' and the source of their lipid in verruciform xanthoma. *J Amer Acad Dermatol*. 1991;24:760.
26. LONSDALE RN. Verruciform xanthoma of the penis. *Brit J Urol*. 1992;70:574.
27. AMANTEA A, GAUDIO E, CATRICALA C, DONATI P, BALUS L. Xantoma verruciforme del pene. *G Ital Dermatol Venereol*. 1989;124:37.
28. GEORGE WM, AZADEH B. Verruciform xanthoma of the penis. *Cutis*. 1989;44:167.
29. LAGUNA URRACA G, CONCHA LOPEZ A, TUDELA PATON MP. Xantoma verruciforme de pene. *Actas Urol Esp*. 1990;14:210.
30. PELLICE C, SOLE M, PELLICE C, CARRETERO P. Xanthome verruqueux du penis. *J d'Urol*. 1987;93:41.
31. POLONOWITA AD, FIRTH NA, RICH AM. Verruciform xanthoma and concomitant lichen planus of the oral mucosa: A report of three cases. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 1999;28(1):62-66.

32. KISHIMOTO S, TAKENAKA H, SHIBAGAKI R, NAGATA M, KATOH N, YASUNO H. Verruciform xanthoma arising in an arteriovenous haemangioma. *Brit J Dermatol.* 1998;139(3):546-48.
33. MIYAMOTO Y, NAGAYAMA M, HAYASHI Y. Verruciform xanthoma occurring within oral lichen planus. *J Oral Pathol Med.* 1996;25(4):188-91.
34. SMITH KJ, SKELTON HG, ANGRITT P. Changes of Verruciform Xanthoma in an HIV-1 + Patient with Diffuse Psoriasiform Skin Disease. *Am J Dermatopathol.* 1995;17(2):185-88.
35. DURAY PH, JOHNSTON YE. Verruciform Xanthoma of the Nose in an Elderly Male. *Am J Dermatopathol.* 1986;8(3):237-240.
36. KIMURA S. Verruciform xanthoma of the scrotum. *Arch Dermatol.* 1984;120:1378-9.
37. BUCHNER A, HANSEN LS, MERRELL PW. Verruciform xanthoma of the oral mucosa: report of five cases and review of the literature. *Arch Dermatol.* 1981;117:563-65.
38. TAKEHANA S, KAMEYAMA Y, FUKAYA M, KAWAI T. Verruciform xanthoma of the gingiva: report of three cases. *Oral Maxillofac Surg.* 1989;47:1079-81.
39. PALESTINE RF, WINKELMANN RK. Verruciform xanthoma in an epithelial nevus. *Arch Dermatol.* 1982;118:686-91.
40. WU JJ, WAGNER AM. Verruciform Xanthoma in Association with Milroy Disease and Leaky Capillary Syndrome. *Ped Dermatol.* 2003;20(1):44-7.