Erysipelas in an atypical location

Róża w nietypowej lokalizacji

Beata Wańczyk-Dręczewska, Agnieszka B. Owczarczyk-Saczonka, Waldemar J. Placek

Department of Dermatology, Sexually Transmitted Diseases and Clinical Immunology, The University of Warmia and Mazury, Olsztyn, Poland

Klinika Dermatologii, Chorób Przenoszonych Drogą Płciową i Immunologii Klinicznej, Uniwersytet Warmińsko-Mazurski w Olsztynie, Polska

CORRESPONDING AUTHOR/ADRES DO KORESPONDENCJI:
Beata Wańczyk-Dręczewska
Klinika Dermatologii, Chorób Przenoszonych Drogą Płciową i Immunologii Klinicznej
al. Wojska Polskiego 30
10-229 Olsztyn
e-mail: beata.wanczyk@gumed.edu.pl

ABSTRACT

Erysipelas is an acute bacterial disease of the skin and subcutaneous tissue. Its most commonly caused by group A beta-haemolytic Streptococci. Factors predisposing to infection include: old age, chronic diseases and immunodeficiency. Erysipelas the most typically develops on lower limbs. Very rarely the lesions are located on the trunk or the genital area. The clinical course is characteristic and includes: sudden onset, high fever, chills, pain as well as swelling, redness and excessive heat of the skin. The article describes a case of a female patient with erysipelas located in the back with a history of chronic myeloid leukaemia. In the differential diagnosis, skin lesions in the course of leukaemia and carcinomatous erysipelas had to be taken into account. The atypical location of skin lesions may have been caused by impairment and dysregulation of the immune system, both secondary to leukaemia and the use of an immunosuppressive drug. In dermatological practice, less typical locations of the infection have to be considered. Early implementation of appropriate treatment allows achievement of therapeutic success and avoiding complications.

STRESZCZENIE

Róża jest ostrą chorobą bakteryjną skóry i tkanki podskórnej. Czynniki etiologiczne są najczęściej paciorkowce β-hemolizujące grupy A. Wśród czynników predysponujących do zakażenia należy wymienić: podeszły wiek, choroby przewlekłe oraz niedobory odporności. Najbardziej typową lokalizacją róży są kończyny dolne. Bardzo rzadko zmiany umiejscowione są na tułowiu lub w okolicy narządów płciowych. Przebieg kliniczny jest charakterystyczny i obejmuje: nagły początek, wysoką temperaturę, dreszcze, dolegliwości bólowe oraz obrzęk, zaczerwienienie i nadmierne ucieplenie skóry. W artykuł opisano przypadek pacjentki z różnicą zlokalizowaną w obrębie plęców z wywodem przewlekłej białaczki szpikowej. W rozpoznaniu różnicowym należało wziąć pod uwagę zmiany skórne w przebiegu białaczki oraz różę nowotworową. Niecharakterystyczne umiejscowienie zmian skórnych mogło być spowodowane upośledzeniem i dysregulacją układu odpornościowego po przebytej białacze, a także stosowaniem leku immunosupresyjnego. W praktyce dermatologicznej należy pamiętać o mniej typowych lokalizacjach tego zakażenia. Wczesne wdrożenie
INTRODUCTION

Erysipelas is an acute, contagious bacterial disease of the skin and subcutaneous tissue. It is most often caused by β-haemolytic Streptococci of group A, less often groups B, C, G and D, and also by Staphylococcus aureus or mixed bacterial strains [1]. Factors predisposing to infection include: old age, chronic diseases – mainly diabetes and atherosclerosis, chronic venous insufficiency, obesity, congenital and acquired immunodeficiencies and hygienic negligence [2, 3]. Most typically erysipelas develops in lower limbs (70–80%), followed by the face and upper limbs [4]. Very rarely lesions are located on the trunk or the genital area (0.5–2.1%) [4]. The clinical course is characteristic and includes: sudden onset, high fever of as much as 41°C, chills, pain as well as swelling, redness and excessive heat of the skin. Skin lesions, very clearly demarcated from the non-affected tissues, have an irregular shape, the skin is smooth, taut and shiny. The differential diagnosis should primarily take into account: venous thrombosis, insect bites and stings, cellulitis, allergic contact dermatitis, drug reaction, animal erysipelas, herpes simplex infection, necrotizing fasciitis, as well as paraneoplastic syndrome – carcinomatous erysipelas [3, 5] (table 1).

OBJECTIVE

The case study of a female patient with erysipelas located on the back.

CASE REPORT

A 46-year-old woman was admitted to the Department of Dermatology because of a erysipelas covering the entire surface of her back. First symptoms in the form of a fever of over 38°C appeared a week before the admission – she was taking azithromycin 500 mg for 3 days, then she was referred to the Emergency Department due to the appearance of skin lesions on her back. At that time, she was treated as for allergic urticaria, with: clemastine, dexamethasone and hydroxyzine, without improvement. The patient was started on appropriate therapy which allowed to achieve therapeutic success and avoid complications.

Key words: erysipelas, leukaemia, chronic meyloid leukaemia, bacterial diseases.

Słowa kluczowe: róża, białaczka, przewlekła białaczka szpicowa, choroby bakteryjne.
### Table 1. The differential diagnosis

| Skin lesions/ Zmiany skórne | Symptoms/Objawy | Aetiological factor or cause/ Czynnik etiologiczny lub przyczyna | Treatment/Leczenie |
|-----------------------------|-----------------|-------------------------------------------------------------|--------------------|
| Erysipelas/ Róża            | Sudden onset, fever reaching 41°C, chills, pain, swelling, redness and excessive heat of the skin. Skin lesions of irregular shape, clearly demarcated from the surrounding area; the skin is smooth, taut and shiny. Nagy początek, gorączka sięgająca 41°C, dreszcze, dolegliwości bólowe oraz obrzęk, zaczerwienienie i nadmierna ucielienie w obrębie skóry. Zmiany skóry o nieregularnym kształcie, wyraźnie odgraniczone od otoczenia; skóra jest gładka, napięta i lśniąca | Beta-haemolytic streptococci of group A, less common groups B, C, G and D, Staphylococcus aureus or mixed strains of bacteria/Pacjent przedstawiający β-hemolizujące grupę A, rzadziej grup B, C, G oraz D, Staphylococcus aureus lub mieszane szczepy bakterii | Antibiotic therapy: penicillin or erythromycin + clindamycin/ Antybiotykoterapia: penicylina lub erytroymcyna + klindamycyna |
| Venous thrombosis/ Zakrzepica żylna | Pain, bruising, limb swelling; painful hardening of the vein. Sub-febrile temperature/Ból, zasienienie, obrzęk kończyn; bolesne stwardnienie żyły. Stan podgorączkowy | Flow disorders and excessive blood coagulation/Zaburzenia przepływu i nadmierna krzepliwość krwi | Anti-thrombotic treatment, compressive therapy, surgical therapy/Leczenie przewlekłe, kręgosłupoterapia, leczenie operacyjne |
| Cellulitis/ Cellulitis     | Strong, vaguely demarcated erythema accompanied by pain and burning sensation. Skin lesions may be accompanied by fever and nausea/Silny, niewyraźnie odgraniczony rumień z towarzyszącym bólem i pieczeniem. Zmianom skórnym może towarzyszyć gorączka oraz nudności | Streptococcus pyogenes + Staphylococcus aureus/ Streptococcus pyogenes + Staphylococcus aureus | Antibiotic therapy: penicillin or erythromycin/ Antybiotykoterapia: penicylina lub erytroymcyna |
| Allergic contact dermatitis/ Alergiczne kontaktowe zapalenie skóry | Exudative papules and vesicles not clearly demarcated from the surrounding; with severe itching, possible swelling and inflammation/Grudki wysiękowe oraz pęcherzyki niewyraźnie odgraniczone od otoczenia; silny świąd, możliwe zmiany obrzękowe i zapalne | Contact allergens/Alergeny kontaktowe | Antihistamines, topical glucocorticosteroids/ Leki przeciwhistaminowe, miejscowo glikokortykosteroidy |
| Drug reaction/ Odczyn polekowy | Various changes in the type of urticaria, oedema, erythema, eczema/Różnorodne: zmiany typu pola ryżki, obrzęku, rumienia, wyprysku | Drugs, e.g.: NSAIDs, antibiotics, psychiatric drugs/Leki, m.in.: NIKPZ, antybiotyki, leki psychiatryczne | Discontinuation of the drug causing the reaction/ Odstawienie leku wywołującego |
| Animal erysipelas/ Róża     | Sharply demarcated erythema, occupying dorsal surfaces of fingers, passing to the back of the hand. Skin lesions are accompanied by minor itching and pain. No general symptoms/Ostro odgraniczony rumień zajmujący grzbietowe powierzchnie palców, przechodzący na grzbiet ręki. Zmianom skórnym towarzyszy niewielki świąd i ból. Brak objawów ogólnych | Erysipelothrix rhusopathiae/ Erysipelothrix rhusopathiae | Antibiotic therapy: penicillin or erythromycin/ Antybiotykoterapia: penicylina lub erytroymcyna |
| Herpes simplex infection/ Zakażenie Herpes simplex | Sudden onset accompanied by fever; Diffuse vesicular lesions with a tendency to cluster/ Nagły początek z towarzyszącą gorączką, rozsiane zmiany pęcherzykowe z tendencją do grupowania się | Herpes simplex/Herpes simplex | Acyclovir/Acyklowir |
| Necrotic fascitis/ Martwicze zapalenie powięzi | Violent course, symptoms of septic shock. Local erythema accompanied by oedema. On that basis, ulcerations and blisters develop, as well as necrosis/Gwałtowny przebieg, objawy wstrząsu septycznego. Lokalna gorączka, wraz z towarzyszącą obrzękami, na podstawie której rozwijają się obrzęki i pęcherze, a także martwica | Mixed bacterial flora/ Mieszana flora bakterijną | Surgical treatment: fasciectomy or amputation; antibiotic therapy guided by antibiogram/Leczenie operacyjne: fasciotomia lub amputacja; antybiotykoterapia zgodnie z antybiogramem |
| Carcinomatous erysipelas/ Róża nowotworowa | Erythematous, tender, well-demarcated lesions with a slightly raised edge. No general symptoms/Rumieniowate, tklowe, dobrze odgraniczone zmiany z niezauważalnie uniesionym brzegiem. Brak objawów ogólnych | Cancer: most often breast cancer. Also, thyroid, larynx, lung, ovary, pancreatic and stomach cancer, and melanoma/Nowotwory; najczęściej piersi, a także tarczy, kręta, płuc, jajnika, trzustki i żołądka oraz czerniak | Surgical treatment, chemotherapy and radiotherapy/Leczenie operacyjne, chemioterapia i radioterapia |
Patient reported that the lesions were quite painful, accompanied by a sensation of burning and heaviness. Laboratory tests performed before the admission to the Teaching Department demonstrated leukocytosis (20.2 thousand/µl), anaemia (RBC: 4.14 million/µl, Hgb: 11.4 g/dl) and significantly elevated inflammatory parameters (ESR 86 mm/h, CRP 411 mg/l). The patient’s medical history involved chronic myeloid leukaemia (CML) since 2016, treated with Dasatinib in a drug program, and recurrent Quincke’s oedema controlled with loratadine at the dose of 10 mg. Physical examination on admission revealed a confluent, inflammatory, excessively warm erythema involving the entire skin of the back from the neck to midbuttocks, spreading to lateral surfaces of the abdomen (figs. 1 A, B). Skin lesions were associated with a considerable tenderness. Laboratory tests revealed increased inflammatory parameters (ESR: 85 mm/h, CRP: 164 mg/l), leukocytosis (17 thousand/µl), and increased LFTs (AST: 57 U/l). Histopathological examination of the obtained specimen revealed scanty infiltrations of T cells (CD3+), neutrophils, histiocytes and single B cells (CD20+) in the dermis around the vessels and skin appendages. Blood was collected for aerobic and anaerobic culture – results were negative. Crystalline penicillin and intravenous clindamycin were used in the treatment, as well as anticoagulant and analgesic treatment, and local cooling ointment, observing a significant improvement in skin lesions (figs. 2 A, B). Considering the observed elevated oddziału ratunkowego z powodu pojawienia się zmian skórnych na plecach. W tym czasie była leczona klemastyną, deksametazonem i hydroksyzyną z powodu podejrzenia pokrzywki alergicznej, jednak bez poprawy. Pacjentka podawała, że zmiany były dość bolesne, towarzyszyło im uczucie pieczenia i ciężkości. W badaniach laboratoryjnych wykonanych przed przyjęciem do Kliniki stwierdzono leukocytozę (20,2 tys./µl), niedokrwistość (erytrocyty: 4,14 mln/µl, Hgb: 11,4 g/dl) oraz znacznie podwyższone parametry stanu zapalnego (OB 86 mm/godz., CRP 411 mg/l). W wywiadzie pacjentka miała przelewklą białaczkę szpikową (chronic myeloid leukaemia – CML) od 2016 r. leczoną w programie lekowym da- zatynibem oraz nawrotowy obrzęk Quinckego kontrolowany loratadyną w dawce 10 mg. W badaniu fizykalnym przy przyjęciu stwierdzono zlewny, za-palny, nadmiernie ucięplony rumień w obrębie całej skóry pleców od szyi aż do połowy pośladków, przechodzący na boczne powierzchnie brzucha (ryc. 1 A, B). Zmianom skórnym towarzyszyła duża tkliwość. W badaniach laboratoryjnych wykazano podwyższone parametry stanu zapalnego (OB 86 mm/godz., CRP: 164 mg/l), leukocytozę (17 tys./µl), podwyższenie wartości parametrów wątrobowych (AspAT: 57 U/l). W badaniu histopatologicznym wycinka stwierdzono skąpe nacieki z limfocytów T (CD3+), granulocytów obojętnochłonnych, histiocyto- w oraz pojedynczych limfocytów B (CD20+) w skórze właściwej wokół naczyń i przydatków skóry. Pobrano

Figure 1. At the admission: extensive and confluent erythema covering almost the entire area of the back. “Peau d’orange” sign-thickened skin with dimpled texture

Rycina 1. Stan miejscowy przy przyjęciu do Kliniki. Widoczny zlewny, rozległy rumień pokrywający całą powierzchnię pleców. Zmianom towarzyszyły twardy obrzęk z drobnymi węglubieniami, tzw. peau d’orange
blood pressure, 2.5 mg ramipril was introduced. The patient reported tongue swelling, dexamethasone 8 mg was administered intravenously once, ramipril was changed to amlodipine 5 mg and serum was collected for total-IgE (466 IU/ml). Control laboratory tests indicated reduced values of inflammatory parameters (CRP: 22 mg/l, ESR: 23 mm/h) and leukocytosis (7.78 thousand/µl). Provocation tests are planned in future.

DISCUSSION

The characteristic clinical presentation, results of laboratory test and significant improvement achieved with antibiotic therapy support the diagnosis of erysipelas. In the case of the described patient, the differential diagnosis had to take into account also skin changes in the course of leukaemia and carcinomatous erysipelas.

Cutaneous symptoms are not uncommon in patients with leukaemia and there are two types of symptoms [6, 7]. The first type involves nonspecific changes in the form of the so-called leukemid, including pruritus, vasculitis, erythema, erythroderma or erythema nodosum, as well as bullous pemphigoid [7, 8]. Specific changes – leukaemia cutis and leukemic vasculitis, occur less frequently and are associated with skin infiltration by cancer cells [7, 9]. Because of the non-specific clinical presentation and great di-krew na posiewy – tlenowo i beztlenowo ujemne. W leczeniu zastosowano penicylinę krystaliczną oraz klindamycynę dożylnie, leki przeciwkrzepliwie oraz przeciwbólowe, a miejscowo maść chłodzącą i uzy-

Figure 2. Significant improvement after treatment: reduction of the size and redness of the erythema

Rycina 2. Znaczna poprawa stanu miejscowego – zblednięcie i zmniejszenie zasięgu rumienia

OMÓWIENIE

Charakterystyczny obraz kliniczny, wyniki badań laboratoryjnych oraz znaczna poprawa po antybiotykoterapii świadczą o rozpoznaniu róży. W przypadku opisywanej pacjentki w rozpoznaniu różnicowym należało wziąć pod uwagę również zmiany skórne w przebiegu białaczki oraz różę nowotworową. Objawy skórne nie są rzadkością u pacjentów z białaczką, wyróżnia się dwa ich rodzaje [6, 7]. Pierwszy to niespecyficzne objawy przybierające postać tzw. leukemidu, wśród nich należy wymienić:
versity, skin lesions developing in the course of leukemia may pose a significant diagnostic problem [9]. In the case of CML, skin infiltration by leukemic cells is rare (2–8% of patients), and non-specific, non-carcinomatous skin lesions are much more common in those patients [10].

Carcinomatous erysipelas is a rare form of metastasis, in which cancer cells spread via superficial lymphatic vessels [11]. Erythematous skin lesions are well demarcated, with a slightly raised edge, and accompanied by tenderness. There are no general symptoms in the course of carcinomatous erysipelas. The most common location of lesions is the chest, followed by upper limbs, the face and neck. In most cases, carcinomatous erysipelas coexists with breast cancer. Cases related to melanoma, thyroid, larynx, lung, ovary, pancreas and stomach cancer have been reported [12, 13]. It may also occur after chemotherapy and radiotherapy, as well as after surgical procedures with lymph node removal [14]. A biopsy is required for a definitive diagnosis.

CONCLUSIONS

In the case of the described patient, the atypical location of skin lesions could be caused by the impairment and dysregulation of her immune system, both secondary to leukaemia and the use of an immunosuppressive drug. Less common locations of this infection should be kept in mind in dermatological practice. Early implementation of appropriate treatment allows to achieve therapeutic success and avoid complications. In the discussed patient, it is reasonable to perform provocation tests to diagnose recurrent Quinck’s oedema.

CONFLICT OF INTEREST

The authors declare no conflict of interest.

References

1. Świątecka J., Purzycka-Bohdan D., Szczerkowska-Dobosz A.: Róża krwotoczna nawrotowa kończyny dolnej – opis przypadku. Forum Med Rodz 2015, 9, 477-480.
2. Michael Y., Shaukat N.M.: Erysipelas. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing 2020.
3. Celestin R., Brown J., Kihiczak G.: Erysipelas: a common potentially dangerous infection. Acta Dermatovenerol Alp Pannonica Adriat 2007, 16, 123-127.
4. Grosshans E.M.: The red face: erysipelas. Clin Dermatol 1993, 11, 307-313.
5. Bonnetblanc J.M., Bedane C.: Erysipelas recognition and management. Am J Clin Dermatol 2003, 4, 157-163.
6. Haidari W., Strowd L.C.: Clinical characterization of leukemia cutis presentation. Cutis 2019, 104, 326-330.
7. Szudy-Szczyrek A., Litak J., Zawitkowska J.: Aleukemiczna białaczka skóry jako manifestacja ostrej białaczki limfoblastycznej. Postęp Nauk Med 2014, 4, 271-274.
8. Badzian A., Ciuruś M., Malinowska A.: Skin lesions in acute myeloid leukaemia – case report. Dermatol Rev 2011, 98, 340-344.
9. Rośińska A., Adamski Z.: Zmiany skórne jako objaw prodromalny przewlekłej białaczki szpikowej – opis przypadku. Dermatol Klin 2008, 10, 162-165.
10. Singhal M., Sing S., Kumar R.: Extensive cutaneous manifestations: presenting feature of chronic myelocytic leukemia in second blast crisis. Indian J Dermatol 2010, 55, 265-267.
11. Lever L., Holt P.: Carcinoma erysipeloid. Br J Dermatol 1991, 124, 279-282.
12. Nikolaou V., Stratigos A., Frangia K.: Carcinoma erysipeloides deriving from a primary cutaneous squamous cell carcinoma. Int J Dermatol 2011, 50, 754-765.
13. Cox S.E., Cruz P.D.: A spectrum of inflammatory metastasis to skin via lymphatics: three cases of carcinoma erysipeloides. J Am Acad Dermatol 1994, 30, 304-307.
14. Mackowiak P.A.: Rash in a patient with ovarian cancer. Clin Infect Dis 2012, 54, 538.

Received: 16.06.2020
Accepted: 4.10.2020

Otrzymano: 16.06.2020 r.
Zaakceptowano: 4.10.2020 r.