

Syringocystadenoma Papilliferum Arising from Nevus Sebaceous: A Case Report

Tahereh Eslammanesh^{1,*} 

¹ Assistant Professor, Department of Pathology, School of Medicine, Rafsanjan University of Medical Sciences, Rafsanjan, Iran

* **Corresponding Author:** Tahereh Eslammanesh, Department of Pathology, School of Medicine, Rafsanjan University of Medical Sciences, Rafsanjan, Iran. Email: dr.eslammanesh@yahoo.com

Abstract

Received: 27.10.2020
Accepted: 28.01.2021

How to Cite this Article:

Eslammanesh T. Syringocystadenoma Papilliferum Arising from Nevus Sebaceous: A Case Report. *Avicenna J Clin Med.* 2021; 27(4): 261-264. DOI: 10.29252/ajcm.27.4.261


Background: Nevus sebaceous is a cutaneous hamartoma accompanied by secondary tumors, such as syringocystadenoma papilliferum. Syringocystadenoma papilliferum is a rare benign tumor with a controversial differentiation between eccrine and apocrine. Most syringocystadenoma papilliferum involving the scalp arises from a nevus sebaceous.

Case Presentation: Herein, we report a 15-year-old adolescent female with a congenital skin lesion on the forehead undergoing surgical excision after changing in size and shape of the lesion. After surgical excision and histopathological examination, a diagnosis of syringocystadenoma papilliferum arising from a sebaceous mole was made.

Conclusion: Syringocystadenoma papilliferum is a rare skin tumor. Histological confirmation was required for a definitive diagnosis. Furthermore, surgery and complete removal of the lesion are needed for treatment.

Keywords: Hamartoma, Nevus Sebaceous, Syringocystadenoma Papilliferum

گزارش یک مورد سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم برخاسته از خال سباسبه

طاهره اسلاممنش^{۱*} ^۱ استادیار، گروه پاتولوژی، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی رفسنجان، رفسنجان، ایران* نویسنده مسئول: طاهره اسلاممنش، گروه پاتولوژی، دانشکده پزشکی، دانشگاه علوم پزشکی رفسنجان، رفسنجان، ایران.
ایمیل: dr.eslammanesh@yahoo.com

چکیده

تاریخ دریافت مقاله: ۱۳۹۹/۰۸/۰۶
تاریخ پذیرش مقاله: ۱۳۹۹/۱۱/۰۹

سابقه: خال سباسبه نوعی هامارتوم پوستی است که با تومورهای ثانویه مثل سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم همراه است. سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم نوعی تومور نادر خوش خیم با تمایز بحث برانگیز بین اکراین و آپوکراین است. بیشتر سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم‌های درگیرکننده اسکالپ در زمینه خال سباسبه دیده می‌شوند. تمامی حقوق نشر برای دانشگاه علوم پزشکی همدان محفوظ است.

معرفی بیمار: بیمار یک دختر نوجوان پانزده ساله با ضایعه پوستی مادرزادی روی پیشانی بود که پس از تغییر اندازه و شکل ضایعه به درمانگاه مراجعه کرده بود. بعد از جراحی ضایعه و بررسی هیستوپاتولوژیک، تشخیص سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم برخاسته از خال سباسبه داده شد.

نتیجه‌گیری: سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم نوعی تومور نادر پوستی است. تأیید هیستولوژیک برای تشخیص قطعی ضایعه الزامی بود و درمان، جراحی و برداشتن کامل ضایعه است.

واژگان کلیدی: خال سباسبه، سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم، هامارتوم

مقدمه

بود و با افزایش سن بیمار بزرگ‌تر شده بود. از چند ماه قبل از مراجعه، ضایعه تغییر ناگهانی در شکل و اندازه داده و با خروج خون و ترشحات همراه بود. جراح این ضایعه را برداشت و برای بررسی میکروسکوپی به آزمایشگاه ارسال کرد.

در نمای ظاهری یک قطعه بافت بیضی شکل پوست به ابعاد ۳×۰/۶×۰/۱ سانتی‌متر با سطح مختصر نامنظم و پچ‌مانند با بزرگ‌ترین قطر ۲/۵ سانتی‌متر همراه با یک پاپول واضح قهوه‌ای‌رنگ به قطر ۰/۳ سانتی‌متر دیده شد.

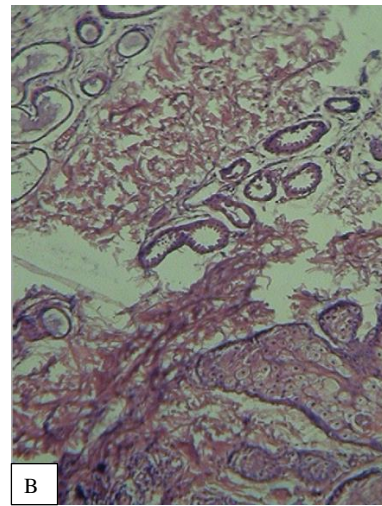
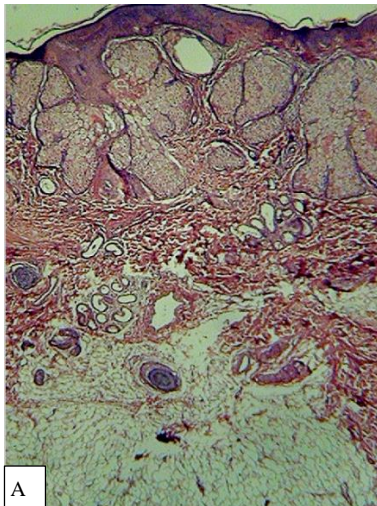
برش‌های نازک ۵ میکرونی از نمونه تهیه و با روش هماتوکسیلین-ئوزین رنگ‌آمیزی شد. در بررسی میکروسکوپی افزایش تعداد غدد سباسبه بالغ، همراه با هیپرپلازی هیپرکراتوتیک پاپیلوماتوز اپیدرم دیده شد. غدد اکراین و آپوکراین بالغ در درم تحتانی و بافت زیر جلدی وجود داشت (شکل ۱). علاوه بر آن، داخل لومن کیست ناشی از انواژیناسیون اپیدرم، برجستگی‌های پاپیلاری برآمده دیده شد (شکل ۲). بیشتر قسمت‌های کیست با سلول‌های سنگ‌فرشی مفروش شده بود که به صورت کانونی، پاراکراتوز نیز نشان می‌داد. قسمت‌های تحتانی انواژیناسیون با دو لایه سلول اپی‌تلیوم غددی پوشانده شده بود (شکل ۳). ساختارهای شبه‌غددی از دیگر ناهای ضایعه بود

خال سباسبه نوعی هامارتوم پوستی با هیپرپلازی اپیدرم، فولیکول مو، غدد سباسبه و غدد آپوکراین است [۱، ۲]. این ضایعه حدود ۰/۵ تا ۱ درصد از ضایعات درماتولوژیک را تشکیل می‌دهد [۲]. خال سباسبه معمولاً در ناحیه سر و گردن و تقریباً همیشه از بدو تولد به صورت ضایعاتی با حدود کاملاً مشخص و به رنگ پوست تا ضایعات پچی زرد رنگ دیده می‌شود که با افزایش سن بزرگ‌تر می‌شود [۱، ۲]. خال سباسبه قابلیت تبدیل شدن به نئوپلاسم‌های خوش خیم و بدخیم را دارد [۱].

سیرنگوسیستادنوما پاپیلیفروم (SCAP: Syringocystadenoma Papilliferum) نوعی تومور نادر خوش خیم و با تظاهرات مختلف است که از غدد آپوکراین یا اکراین منشأ می‌گیرد و گاهی اوقات می‌تواند باعث مشکلات تشخیصی شود [۳]. بیشتر موارد SCAP در ناحیه اسکالپ همراه با خال سباسبه دیده می‌شود [۴].

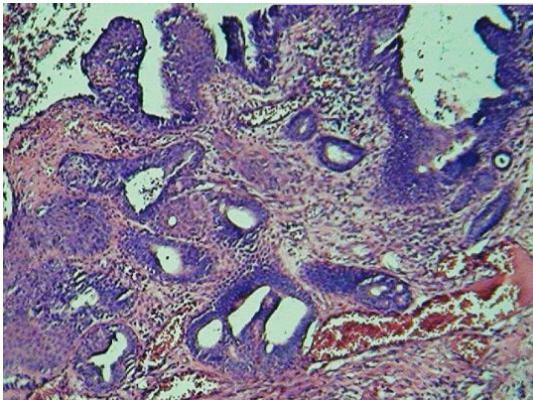
معرفی بیمار

بیمار دختر ۱۵ ساله‌ای بود که از بدو تولد ضایعه پوستی در ناحیه پیشانی داشت. این ضایعه پچی شکل و به رنگ پوست

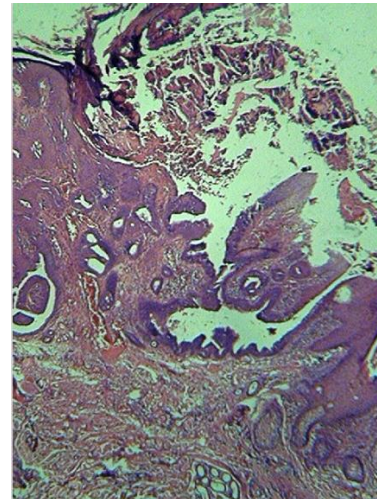


شکل ۱: خال سباسبه

A: هیپرپلازی غدد سباسبه، B: قرارگیری غدد اکراین و آپوکراین در درم تحتانی و بافت زیرجلدی (بزرگ‌نمایی ۱۰۰)



شکل ۴: SCAP؛ در استرومای زیرین زوائد پاپیلاری ساختارهای شبه‌غددی دیده می‌شود. (بزرگ‌نمایی ۱۰۰)



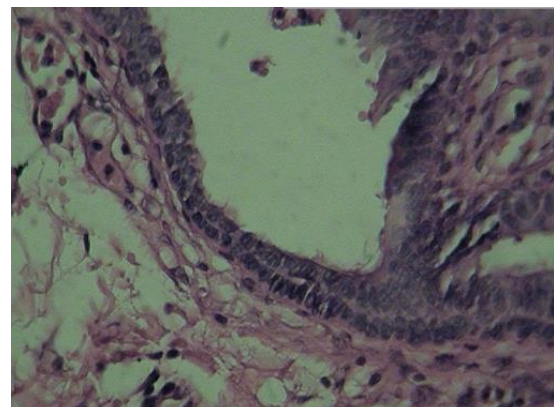
شکل ۲: SCAP زوائد پاپیلاری داخل کیست ناشی از انواژیناسیون اپیدرم (بزرگ‌نمایی ۱۰۰)

بحث

SCAP می‌تواند به صورت مستقل یا بیشتر در زمینه خال سباسبه دیده شود [۵]. SCAP نوعی تومور نادر ضمام پوستی است. ۵۰ درصد از موارد در زمان تولد دیده و ۱۵ تا ۳۰ درصد در زمان بلوغ ایجاد می‌شود. اسکالپ صورت شایع‌ترین محل آن است و ۴۰ درصد از موارد همراه با خال سباسبه است. ۲۵ درصد از موارد در ناحیه تنه یا ژنیتال حین بلوغ یا بزرگ‌سالی بدون ضایعه قبلی مشاهده می‌شود [۲، ۵]. SCAP معمولاً یک الگوی قرینه همراه با ساختار پاپیلاری اگزوفیتیک با قرمزی و زخم دارد [۶]. فیستول کوچک خارج‌کننده مایع شفاف، خونی یا بدبو هم‌گامی دیده می‌شود. نماهای دیگر پاپول‌های Rose-red با قوام سفت با آنکلوژیون‌های شبه‌وزیکول و تعدادی پاپول ناف‌دار است [۵].

SCAP جزء شایع‌ترین نفوپلاسم‌های خوش‌خیم برخاسته از یک خال سباسبه از قبل موجود است [۱، ۵]. در نمای هیستوپاتولوژی SCAP برخاسته از یک خال سباسبه، هیپرپلازی پاپیلوماتوز اپیدرم همراه با ساختارهای شبه‌مجرای نامنظم و فضاهای کیسیک مفروش‌شده با یک اپی‌تلیوم دولایه دیده می‌شود [۷]. احتمالاً SCAP از سلول‌های تمایزنیافته با قابلیت

(شکل ۴). استرومای اطراف کیست، التهاب متوسط سلول‌های تک‌هسته‌ای را نشان می‌داد. با توجه به شرح حال بالینی و نماهای هیستولوژیک تشخیص SCAP برخاسته از یک خال غده سباسبه برای بیمار مطرح شد.



شکل ۳: پوشش دولایه زوائد پاپیلاری SCAP (بزرگ‌نمایی ۴۰۰)

به صورت یک پچ منفرد یا پلاک مختصر برآمده صورتی، زرد، نارنجی تا خرمایی‌رنگ با آلپوسی دیده می‌شود. ارجحیت جنسی یا نژادی ندارد و معمولاً در زمان تولد روی اسکالپ دیده می‌شود [۵، ۲]. با افزایش سن اندازه آن بزرگ‌تر می‌شود و در زمان بلوغ نمای سربریفورم زردرنگ پیدا می‌کند [۲]. رفتار خال سباسبه غیرقابل پیش‌بینی است و احتمال ایجاد ضایعات خوش‌خیم و بدخیم ثانویه روی آن وجود دارد [۵، ۲].

درباره زمان درمان خال سباسبه بحث وجود دارد. بعضی از مطالعات برداشتن جراحی ضایعه در مراحل اولیه را توصیه می‌کنند [۲]، ولی از آنجاکه میزان تومورهای بدخیم ثانویه در خال سباسبه بسیار کم است، به نظر می‌رسد توصیه کلاسیک برداشتن جراحی خال سباسبه کوچک به‌صورت پروفیلاکتیک در دوران کودکی به بهانه وجود ریسک تغییر بدخیمی، احتمالاً منفعت مشخصی ندارد. پیگیری کلینیکی دقیق برای خال سباسبه در کودکان توصیه می‌شود [۵]. برداشتن خال سباسبه به روش جراحی ممکن است تا زمان بلوغ به علت ریسک بدخیمی کم به تأخیر بيفتد [۱]. مانیتورینگ دقیق و برداشتن جراحی خال سباسبه برای اطمینان از پروگنوز مطلوب توصیه می‌شود [۱۱]. به‌طور کلی SCAP نوعی تومور نادر است که معمولاً در ناحیه سر و گردن و بیشتر در زمینه خال سباسبه رخ می‌دهد. در بیمار گزارش شده نیز بررسی هیستوپاتولوژیک ضایعه، SCAP ایجاد شده در زمینه خال سباسبه را تأیید کرد. تأیید هیستوپاتولوژیک برای تشخیص قطعی الزامی است و درمان، جراحی و برداشتن کامل تومور است.

REFERENCES

1. Faheem NA, Kwan Z, Yong AS, Ch'ng CC, Tan KK, Naicker M, et al. Syringocystadenoma papilliferum arising in a naevus sebaceous. *Malays J Pathol*. 2019;41(1):47-9. PMID: 31025637 DOI: 10.1080/003130201201117000
2. Alvarez M, Alcalá D, Trejo J, Ramos A. Basal cell carcinoma and syringocystadenoma papilliferum arising together in a sebaceous nevus: 1414. *J Am Acad Dermatol*. 2015; 72(5):736.
3. Chandramouli M, Sarma D, Tejaswy K, Rodrigues G. Syringocystadenoma papilliferum of the scalp arising from a nevus sebaceous. *J Cutan Aesthet Surg*. 2016;9(3):204-6. PMID: 27761094 DOI: 10.4103/0974-2077.191656
4. Jaramillo-Manzur SC, Aguilar-Medina DA, Medina-Castillo DE, Rodríguez-Patiño G. Syringocystadenoma papilliferum on a nevus sebaceous. *Dermatol Rev Mexicana*. 2017; 61(5):404-8.
5. Bull HD. Mixed skin adnexal tumour arising from naevus sebaceous: a woman presented with a scalp nodule. *Dermatol. Venerol Bull*. 2004;12:157-60.
6. Lobato-Berezo A, Aguilera-Peiro P, Pujol RM. Tumor collision over sebaceous nevus: clues for dermoscopic diagnosis. *Acta Dermosifiligr*. 2018;109(7):647-8. PMID: 29807617 DOI: 10.1016/j.ad.2017.04.034
7. Castilla EA, Bergfeld WF, Ormsby A. Trichilemmoma and syringocystadenoma papilliferum arising in naevus sebaceous. *Pathology*. 2002;34(2):196-7. PMID: 12009106 DOI: 10.1080/003130201201117000
8. Chauhan A, Gupta L, Gautam RK, Bhardwaj M, Gopichandani K. Linear syringocystadenoma papilliferum: a case report with review of literature. *Indian J Dermatol*. 2013;58(5):409. PMID: 24082219 DOI: 10.4103/0019-5154.117353
9. Chi CC, Tsai RY, Wang SH. Syringocystadenocarcinoma papilliferum: successfully treated with Mohs micrographic surgery. *Dermatol Surg*. 2004;30(3):468-71. PMID: 15008887 DOI: 10.1111/j.1524-4725.2004.30023.x
10. Ankad BS, Beergouder SL, Dombre V. Trichoscopy: the best auxiliary tool in the evaluation of nevus sebaceous. *Int J Trichol*. 2016;8(1):5-10. PMID: 27127368 DOI: 10.4103/0974-7753.179394
11. Stavrianeas NG, Katoulis AC, Stratigeas NP, Karagianni IN, Paterou-Stavrianea M, Vareltzidis AG. Development of multiple tumors in a sebaceous nevus of Jadassohn. *Dermatology*. 1997;195(2):155-8. PMID: 9310725 DOI: 10.1159/000245721

بروز ویژگی‌های توام آپوکرین و اکرین منشأ می‌گیرد [۱].
 Bozi و Katoulis سه نوع SCAP را شرح دادند؛ اولین نوع که پلاک-تایپ نامیده می‌شود به‌صورت یک پلاک بدون مو روی اسکالپ ظاهر می‌شود و اغلب با خال سباسبه همراه است، معمولاً در زمان تولد آشکار می‌شود و بعد از بلوغ به‌تدریج بزرگ می‌شود. نوع دوم خطی است که به‌صورت پاپول‌های متعدد ناف‌دار دیده می‌شود. نوع سوم به‌صورت ندول منفرد و عمدتاً روی تنه است. زخمی و بزرگ شدن سریع ضایعه شک به بدخیمی را برمی‌انگیزد [۱]. SCAP می‌تواند به کارسینوم سلول قاعده‌ای، کارسینوم سلول سنگ‌فرشی و سیرنگوسیستادنوکارسینوم پاپیلاری تبدیل شود [۸]. با توجه به خطر ایجاد بدخیمی و تظاهرات متنوع SCAP، برداشتن جراحی همراه با تأیید هیستوپاتولوژیک برای تشخیص و درمان آن ضروری است [۹].
 هیستوپاتولوژی SCAP شامل تغییرات کیستیک و دیلاتاسیون در غدد و مجاری عرق همراه با زوائد پاپیلاری متعدد است که به داخل لومن گسترش یافته است. زوائد پاپیلاری با اپی‌تلیوم غددی شامل دو ردیف سلول مفروش شده است [۵].
 خال سباسبه نوعی ضایعه هامارتومی با حدود مشخص، ثانویه به تکامل مختل ساختارهای اپی‌تلیال، پیلار، سباسبه و آپوکرین است [۵]. خال سباسبه نوعی هامارتوم مادرزادی خوش‌خیم است که معمولاً اسکالپ یا صورت را درگیر می‌کند [۱۰]. پاتوژنز خال سباسبه نامشخص است، ولی ضایعه هر دو جزء اپی‌تلیالی و غیر اپی‌تلیالی را درگیر می‌کند که منعکس‌کننده مالفورماسیون هم در جزء اکتودرمی و هم مزودرمی است. معمولاً