

· 短篇论著 ·

骶尾部小汗腺螺旋腺瘤一例报告并文献复习

王伟东 付强 杜冬*

暨南大学第二临床医学院 (广东 深圳 518000)

【摘要】目的 探讨小汗腺螺旋腺瘤的临床病理特点、影像学检查、治疗及预后。方法 回顾性分析1例骶尾部小汗腺螺旋腺瘤患者的临床病例、治疗方案和随访结果，并结合国内外文献探讨小汗腺螺旋腺瘤的发病和诊疗状况。结果 小汗腺螺旋腺瘤误诊率极高，用手术或活检可以确定诊断。首选手术切除，预防复发。结论 小汗腺螺旋腺瘤是发生于外分泌腺的一种良性肿瘤，临床症状、体征及影像学表现均不典型，手术前诊断较困难，确诊主要依靠术后的病理形态特征，目前治疗手段主要是根治性切除。

【关键词】小汗腺螺旋腺瘤；超声检查；误诊

【中图分类号】R758.7

【文献标识码】A

DOI:10.3969/j.issn.1009-3257.2024.3.003

A Case Report And Review Of Acrococcygeal Eccrine Spiradenoma

WANG Wei-dong, FU Qiang, DU Dong*

The Second Clinical Medical College of Jinan University, Shenzhen 518000, Guangdong Province, China

Abstract: Objective To investigate the clinicopathological features, imaging, treatments and prognosis of eccrine spiradenoma. **Methods** The clinical data, treatment plans and follow-up results of one patient with eccrine spiradenoma were retrospectively analyzed, and the epidemiology, diagnosis and treatment of eccrine spiradenoma were discussed based on domestic and foreign literatures. **Results** Surgery or biopsy can confirm the diagnosis of eccrine spiradenoma, while it is easily misdiagnosis. Surgical resection is preferred to prevent recurrence. **Conclusion** eccrine spiradenoma is a benign tumor occurring in the exocrine glands, with atypical clinical manifestations and imaging examinations, which is Diagnosed mainly based on postoperative pathological features, and preoperative diagnosis is difficult.

Keywords: Eccrine Spiradenoma; Ultrasonography; Misdiagnosis

小汗腺螺旋腺瘤(Eccrine Spiradenoma,ES)在临床上极其罕见，误诊率也很高。本文对我院1例小汗腺螺旋腺瘤患者的诊疗经过进行总结回顾并复习国内外相关文献资料，提高对该病的认识及重视，旨在为临床工作提供参考和帮助。

1 资料与方法

1.1 临床资料 患者，女，25岁，主因“发现骶尾部肿物半年，疼痛2个月”入院。患者诉在半年前无明显诱因出现骶尾部肿物，当时直径约3cm×1cm大小，无明显自觉症状，患者未予以重视，未行相关诊治。近2个月来发现肿块开始出现疼痛不适，无伴皮肤红肿，为进一步治疗，于2022年4月15日我院门诊就诊。既往史、个人史及家族史均未见明显异常。体格检查：一般情况可，各器官系统检查未见明显特殊。专科体查：骶尾部可触及约3cm×1cm的肿块，边界欠清楚，质韧，活动度差，轻压痛，表面皮肤无破溃，未触及血管震颤、搏动，未闻及血管杂音。辅助检查：抽血化验结果未见明显异常，影像学表现：多普勒超声提示右侧骶尾部皮下0.9mm处可见一异常回声，大小约28×9mm，形状呈椭圆形，加压时，形态变扁，内部为低回声，分布不均质，其内可见多个小的无回声暗区，边界清楚但不整齐，后方回声无变化。CDFI异常回声内部及周围未见异常血流信号。核磁成像：臀裂右上缘皮下不规则异常信号，范围约1cm×0.9cm×3.1cm，骶骨未见异常。入院初步诊断为藏毛窦囊肿，为明确诊断及治疗。拟手术探查切除。

1.2 手术情况 术前标记肿物大小范围，在椎管内麻醉下手术探查，以骶尾部肿物为中心取纵梭形切口长约5cm，切开皮肤，分离皮下，显露肿物，见肿物鹌鹑蛋大小，与周围组织有粘连，肿物基底与皮下脂肪组织无明显粘连，沿皮下脂肪层肿物边缘游离肿物后完整切除。术后组织送病理检查。

2 结果

2.1 病理情况 大体所见：带皮组织一块，大小约5cm×3cm×2cm，皮肤大小约5cm×1.5cm，局灶已切开，切面可见灰白多结节区域，直径范围大致0.5cm。镜下表现：在真皮和皮下组织内有相对较大但边界清晰的多发结节。病理诊断为小汗腺螺旋腺瘤。

2.2 随访情况 手术切口已愈合，术后6个月随访无复发。

3 讨论

3.1 流行病学及临床表现 ES是一种最早由Kersting和Helwig在1956年首先报告发生在小汗腺内导管和腺体低级分化的良性肿瘤^[1-2]。目前关于ES的病因及发病机理国内外尚未研究清楚，对于ES的病例报道和基础研究分析较少。文献报道该病发病率极低，主要发生在15-35岁的患者，无明显的性别差异性^[1]。据徐斐妮等学者统计分析14例ES的病历中男女之比1:1.8，中位发病年龄为40.5岁^[3]，但各文献中所报道ES的发病年龄及性别比例的统计学数据常受样本量偏少的限制，所以结果差异性较大。临床上ES常表现为一种较小的结节状病变，大部分为单发，皮损少见多发，可呈线样或带状疱疹样分布特点^[4-5]。有学者认为多发性ES常伴有家族史，为常染色体显性遗传^[6]。当伴有多发性毛发上皮瘤时，可被诊断为Brooke-Spiegler综合征^[7]。另外，徐斐妮学者统计14例患者中10例(71.43%)皮损位于躯干，3例(21.43%)位于头面部，1例(7.14%)则位于四肢，既往也有文献报道，骶尾部、眼睑和腮腺等特殊部位也可发生。皮损边界均较清楚，颜色可呈现皮色、红色或蓝色等，且多伴有疼痛或触压痛，但均缺乏特征性的表现，极易容易误诊。Hye Ran等学者认为该症状是由于病损结节周围由丰富的神经纤维包裹所导致的^[8]，常容易与单发性的汗腺腺样囊性癌^[9]、神经鞘瘤、血管球瘤或藏毛窦囊肿相混淆，所以类似皮损

【第一作者】王伟东，男，在读研究生，主要研究方向：手显微血管外科方向。E-mail: wwd8644@163.com

【通讯作者】杜冬，男，主任医师，主要研究方向：显微血管外科、早癌筛查。E-mail: 13922801116@163.com

均需做病理诊断。本文报道的病例表现为一单发的皮下痛性结节,与既往相关文献描述的一致。

3.2 影像学检查 ES的超声表现目前在很少文献中提及。Balaban M在2015年首次报道了关于ES的超声和超声弹性成像的表现,随后,在2018年Hwang对8例患有ES的患者术前超声进行了总结分析,ES常位于真皮和皮下脂肪层,没有延伸到肌肉层,大小范围为1cm-10cm,低回声、不均匀的回声纹理、后部声学增强和中央和周围区域的血流。本次报道的病损位置、大小、病损的信号以及与周围软组织的粘连情况与既往报道的文献一致。但值得注意,本次报道的病例的术前超声病灶内部及周围并无血流信号。陈开良等专家对19例确诊ES患者与46例对照组的超声进行对比分析,认为分叶状形态、后方回声增强是ES的危险声像特征,得出分叶状形态+后方回声增强征象组合诊断ES的敏感性和特异性

为79.17%、97.83%^[10]。学者普遍认为超声检查在ES的定位和鉴别诊断中起着非常重要的作用,但由于ES的临床和超声检查结果并不典型,因此确诊通常基于组织病理学诊断。有学者提出使用螺旋CT扫描有助于诊断骶尾部病变,尤其能筛查破坏骨质的肿瘤^[11]。Swati Satturwar等学者指出在细胞穿刺中ES存在特征性的椭圆形和梭形的基底样细胞以及淋巴细胞,缺乏内皮细胞,但与少数血管球瘤容易混淆,可借助于免疫组化进一步鉴别^[12]。

3.3 治疗措施 ES的首选治疗是简单手术切除便可治愈。但也存在罕见的复发和恶变的病例报道,尤其存在一些病损组织较大的病例中^[13],并且有学者推荐针对这一类罕见的皮肤肿瘤,采用莫氏显微外科技术进行切除,确保完全切除和保留瘤体的完整性^[14]。对于多发性皮损的病变,在国外也有一些关于放疗和二氧化碳激光治疗的相关报道^[15]。

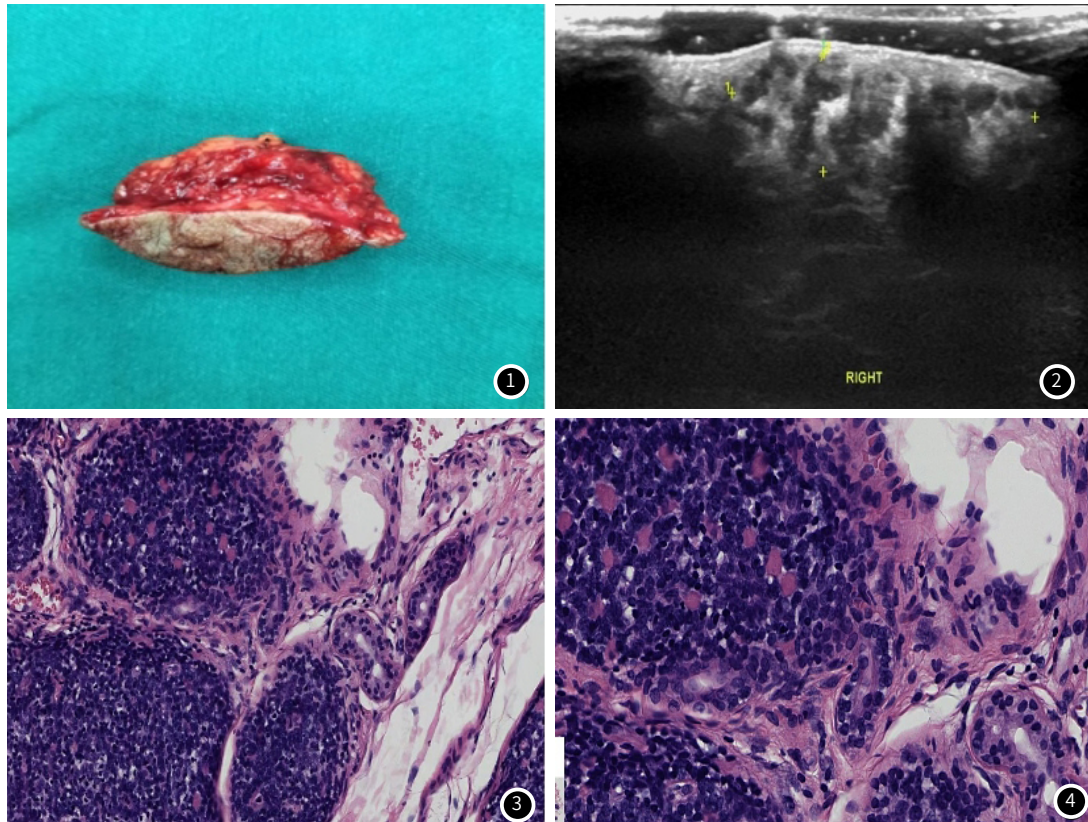


图1 肿物切面见多个直径0.1cm~1.0cm灰白色结节。图2 超声可见多个小的无回声暗区,边界清楚但不整齐,后方回声无变化。图3 (HE 10×10) 图4 (HE 20×10)病理:肿瘤位于皮下,瘤细胞呈结节状或团块状浸润,周围有纤维组织包绕,细胞核大不规则,部分可见核仁,细胞核大且淡染,核呈圆形或卵圆形,偶见空泡,胞浆嗜酸性明显。

参考文献

- [1] Kanwaljeet S, Chatterjee T. Eccrine spiradenoma: A rare adnexal tumor [J]. Indian Journal of Cancer, 2017, 54 (4): 695-696.
- [2] Kersting D W, Helwig E B. Eccrine spiradenoma [J]. A. M. A. Archives of Dermatology, 1956, 73 (3): 199-227.
- [3] 徐斐妮, 陈爱军. 14例小汗腺螺旋腺瘤临床及病理特征分析 [J]. 中国麻风皮肤病杂志, 2021, 37 (7): 424-427.
- [4] Englander L, Emer J J, McClain D, et al. A rare case of multiple segmental eccrine spiradenomas [J]. The Journal of Clinical and Aesthetic Dermatology, 2011, 4 (4): 38-44.
- [5] Ohtsuki Y, Ohtsuka H, Kurabayashi A, et al. Immunohistochemical and electron microscopic studies of Langerhans cells in a case of multiple eccrine spiradenomas [J]. Medical Molecular Morphology, 2007, 40 (4): 221-225.
- [6] Dhua S, Sekhar D R. A rare case of eccrine spiradenoma-treatment and management [J]. European Journal of Plastic Surgery, 2016, 39: 143-146.
- [7] Watanabe Y, Mori T, Makino T, et al. Giant Vascular Cylindroma in a Case of Brooke-Spiegler Syndrome [J]. Indian Dermatology Online Journal, 2022, 13 (6): 792-793.
- [8] Park H R, Im S B, Kim H K, et al. Painful eccrine spiradenoma containing nerve fibers: a case report [J]. Dermatology (Basel, Switzerland), 2012, 224 (4): 301-306.
- [9] 金国, 韩金友. 汗腺腺样囊性癌的诊治——附1例报告 [J]. 罕少疾病杂志, 2002, 9 (2): 64-65.
- [10] 陈开良, 吴嗣泽, 杨克丰, 等. 小汗腺螺旋腺瘤的超声特征及其诊断效能研究 [J]. 中华超声影像学杂志, 2022, 31 (11): 973-977.
- [11] 上官建伟, 梁俊芳, 肖新广, 等. 螺旋CT扫描及多平面重建 (MPR) 技术在骶尾部病变诊断中的应用 [J]. 中国CT和MRI杂志, 2017, 15 (7): 130-132.
- [12] Satturwar S, Wakely P E, Lott Limbach A. Fine needle aspiration cytopathology of eccrine spiradenoma [J]. Journal of the American Society of Cytopathology, 2022, 11 (5): 274-280.
- [13] Chou S-C, Lin S-L, Tseng H-H. Malignant eccrine spiradenoma: a case report with pulmonary metastasis [J]. Pathology International, 2004, 54 (3): 208-212.
- [14] Buffo T H, Stelini R F, Serrano J Y M, et al. Mohs micrographic surgery in rare cutaneous tumors: a retrospective study at a Brazilian tertiary university hospital [J]. Anais Brasileiros De Dermatologia, 2022: S0365-0596 (22) 00230-6.
- [15] Kaleeswaran A V, Janaki V R, Sentamilselvi G, et al. Eccrine spiradenoma [J]. Indian Journal of Dermatology, Venereology and Leprology, 2002, 68 (4): 236-237.

(收稿日期: 2023-03-25)

(校对编辑: 姚丽娜)