

Uylukta lentiginöz hiperplazi zemininde gelişen mikst tübülopapiller hidroadenom ve siringokistadenoma papilliferum

Mixed tubulopapillary hidroadenoma and syringocystadenoma papilliferum of the thigh occurring on lentiginous hyperplasia

Ayşin Karasoy YEŞİLADA, Mahmut Ulvi KAYALI, Özay ÖZKAYA
Damlanur SAKIZ*, Lütfü BAŞ

Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi Plastik Rekonstrüktif ve Estetik Cerrahi Kliniği
* Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi Patoloji Kliniği

ÖZET

Siringokistadenoma papilliferum (SKP) nadir görülen adneksiyal benign bir tümördür. Genellikle saçlı deri ve yüzde görülür ve sıklıkla sebace nevüs zemininde gelişir. Bu lezyon nadir olarak gövde ve ekstremitelerde ortaya çıkar. Mikst tübülopapiller hidroadenom adneksiyal tümörler içerisinde yeni tanımlanmış ve üzerinde halen tartışma devam eden tanımlamadır. Bu tümör papiller ektrin adenom (PEA) ile tübüler apokrin adenom (TAA) arasındaki yelpazede bir grup lezyonu tarif etmek için kullanılır. Literatürde tübüler apokrin adenom veya papiller ektrin adenom ile siringokistadenoma papilliferum birlikteliği sekiz olguda bildirilmektedir. Bu çalışmada 59 yaşında kadın hastada uyluk yerleşimli mikst tübülopapiller hidroadenom ve siringokistadenoma papilliferum özellikleri taşıyan bir olguyu sunmayı amaçladık. Ayrıca bu olguda zeminde lentiginöz melanositik hiperplazi de eşlik etmekteydi.

Anahtar kelimeler: Siringokistadenoma papilliferum, lentiginöz hiperplazi, mikst tübülopapiller hidroadenom.

SUMMARY

Syringocystadenoma papilliferum is an uncommon cutaneous adnexal benign tumor most commonly located on the scalp or face. It frequently arises from a nevus sebaceus. This lesion rarely arises on the trunk and extremities. Mixed tubulopapillary hidroadenoma is a recently proposed category for adnexal tumors that remains controversial. It encompasses a spectrum of lesions from papillary eccrine adenoma (PEA) to tubular apocrine adenoma (TAA). Eight cases of tubular apocrine adenoma or papillary eccrine adenoma with syringocystadenoma papilliferum have been reported. We present a case of 56-year old female patient with tubulopapillary hidroadenoma and syringocystadenoma papilliferum with lentiginous melanocytic hyperplasia on the thigh.

Key words: Syringocystadenoma papilliferum, lentiginous hyperplasia, mixed tubulopapillary hidroadenoma

GİRİŞ

Siringokistadenoma papilliferum nadir görülen benign bir deri eki tümörüdür. Genellikle saçlı deri ve yüzde yerleşir ve sıklıkla sebace nevüs zemininde gelişir. Lezyonlara gövde ve ekstremitelerde nadiren rastlanır (1, 2).

Geleneksel yöntemler ile yapılan araştırmalar, özel boyama yöntemleri, enzim biyokimyası, immünohistokimyasal çalışmalar ve elektron

mikroskop çalışmaları tümörün kaynağı ile ilgili farklı sonuçlar ortaya çıkarmıştır. Değişik yazarlar tarafından lezyonun kökeninin apokrin bezler, ektrin bezler ya da apo-ektrin bezler olabileceği belirtilmiştir (3-7). Nadiren siringokistadenoma papilliferum (SKP) ve mikst tübülopapiller hidroadenom (ektrin ve apokrin farklılaşma gösteren dermal duktal tümörler) beraber görülürler (8). Literatürde tübüler apokrin adenom (TAA) veya papiller ektrin adenom (PEA) ile SKP birlikteliği sekiz olgu sunumunda gösterilmiştir (9-16).

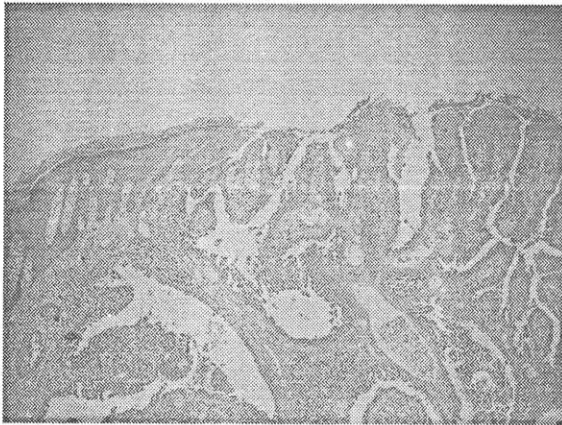
Bu çalışmada uylukta tübülopapiller hidroadenom ve SKP'nin birlikte görüldüğü mikst bir tümör olgusunu tanımladık ve bildirdik.

Yazışma Adresi:

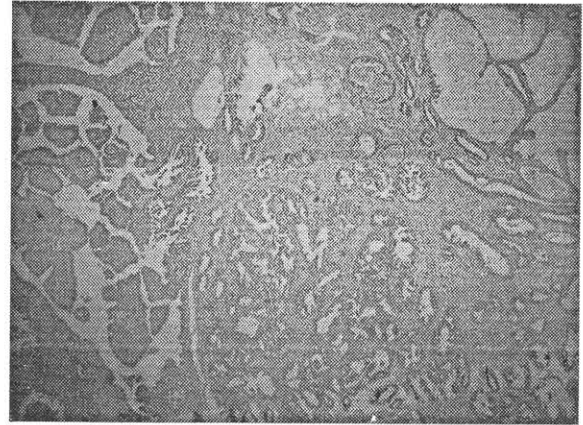
Dr. Ayşin YEŞİLADA
Şişli Etfal Eğitim ve Araştırma Hastanesi
Estetik Cerrahi Kliniği
Tel : (0212) 225 94 84
Fax : (0212) 225 94 84



Şekil 1: 59 yaşında kadın hasta uyluk anterolateralinde pigmente lezyon zemininde 2 adet ülsere plak nedeniyle kliniğimize başvurdu



Şekil 2: Lezyonun tipik siringokistadenoma papilliferum alanında yüzey epidermis ile bağlantılı dermise doğru lümeninde papiller yapılanmaların bulunduğu invajinasyon odakları



Şekil 3: Tipik siringokistadenoma papilliferum alanına komşu farklı çapta tübüler yapılarından oluşan apokrin tübüler adenom

OLGU SUNUMU

59 yaşında kadın hasta, uyluk anterolateralinde pigmente lezyon zemininde 2 adet ülsere plak nedeniyle kliniğimize başvurdu (Şekil 1). Hastanın mevcut lezyonlar nedeniyle şiddetli ağrı şikayeti mevcuttu. Fizik muayenede ülsere plakların 2,5 cm çapında olduğu ve plakların etrafında hale şeklinde kahverengi-mor renkte nevus benzeri lezyonlar izlenmekteydi. Plakların etrafındaki hale şeklinde hiperpigmente lezyonların çapı 5,2 cm olarak ölçüldü. Ayrıca plaklardan bağımsız, ama onlara yakın, kahve renkli, pigmente ve çapları 3,0-5,4 cm arasında değişen 4 adet lezyon plaklara yakın bulunmaktaydı. Ülsere plak palpe edildiğinde hasta şiddetli ağrı tarif ediyordu.

Hasta bu ülsere plakların 2 yıldır var olduğunu ifade etmekteydi. Bu plakların sık kanamamasından ve ağrıdan yakınıyordu. Kliniğimize başvurmadan önce bir dermatolog tarafından 2 ay önce punch biyopsi alındığını bildirdi. Daha önce yapılmış olan ve farklı bir patoloji laboratuvarında değerlendirilen punch biyopsi siringokistadenoma papilliferum olarak rapor edilmişti. Hastanın 2 adet ülsere plağı ve plak çevresinde varolan hiperpigmente lezyonları eksize edildi ve defekt kısmi kalınlıklı deri grefti ile rekonstrükte edildi.

Histopatolojik incelemede yüzey hiperplastik epidermis ile bağlantılı dermise doğru inva-

Tablo 1: Mikst tübüler apokrin adenom veya papiller ekrin adenom ve siringokistadenoma birlikteliğinin yayınlandığı olgular

	Cinsiyet/yaş/ tanımlanma tarihi	Yerleşim/klinik özellikler	Patoloji	Diğerleri
Pai-Jui-Hsu (9)	Erkek /19/2002	Krus / kahverengi siğilimsi erozyona uğramış yüzey	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	Hem TAA hem de PEA özellikleri barındırmakta ve siğilimsi görünümündedir.
Ishiko A (10)	Erkek/75/1993	Skalp/verrüköz	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	TAA, SKP ve PEA arasındaki benzerliklerden makalede bahsedilmiştir.
Civate (11)	Kadın/76/1979	Siyah/erozyona uğramış, siğilimsi yüzeysel nodül	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	TAA'nın PEA ile aynı patolojik tanımlama oluğu iddia edilmiştir.
Toribio (12)	Kadın/33/1987	Skalp/eksüstasyonlu siğilimsi yüzeysel nodül	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	Apokrin kökenli hamartom
Ansai (13)	Erkek/22/1989	Skalp/kırmızı eksüstasyonlu ve erozyona uğramış yüzey	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	Apokrin kökenli hamartom
Coyne (14)	Kadın/43/2000	Skrotum/polipoid kondilomatöz	Üst kısım SKP ve alt kısım PEA	Kondilom ile ilişkili
Aktepe F (15)	Erkek/19/2003	Skalp/verrüköz,pembemsi, saçsız	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	TAA özellikleri barındırmakta ve siğilimsi görünümündedir.
Epstein BA (16)	Erkek/ergen/1990	Göğüs bölgesi/verrüköz	Üst kısım SKP ve alt kısım TAA	TAA ve SKP birlikteliği vurgulanmıştır.

jinasyonlar şeklinde gelişim gösteren iki sıralı epitel ile döşeli tümöral lezyon izlendi. Çevrede yoğun lenfoplazmositer iltihabi hücre infiltrasyonu mevcuttu. Bu lezyonun tabanında, tübüler ve lümene doğru papiller yapılar oluşturan ayrı bir gelişim söz konusuydu. Epitel geniş alanda iki sıralı olup hücrelerin sitoplazmalarının lümene doğru dekapitasyon sekresyonları yaptığı dikkati çekti. Ülsere plaklar tübülöpapiller hidroadenom ile birlikte siringokistadenoma papilliferum ve bu iki lezyon tabanında ve komşuluğunda bulunan lezyonlar ise lentiginöz hiperplazi olarak değerlendirildi.

TARTIŞMA

Siringokistadenoma papilliferum nadir görülen bir ter bezi adenomudur. İlk defa John Stokes tarafından 1917 yılında tariflenmiş ve günümüze kadar 261 olgu bildirilmiştir (7). Helwig ve Hackney (3) 100 olgudan oluşan geniş seriyi 1955 yılında rapor etmişlerdir. Mammino (4) 1991 yılında 1917'den 1985 yılı-

na kadar literatürde yayınlanmış 145 olguyu derlemiştir. Lezyonların %75'i baş ve boyun bölgesinde, %20'si gövdede ve sadece %5'i ekstremitelerde görülmüştür (4). Ekstremitelerde görülen 8 lezyondan 7'si alt ekstremitede görülmüştür (5 uyluk ve 2 ayak parmağı) (4). Siringokistadenoma papilliferum olgularının %55'i erken çocukluk çağında tespit edilmektedir (7). 50 yaşın üzerinde bu lezyonun görülme sıklığı çok düşüktür (7). Hastamız 59 yaşındadır ve lezyonda anterolateral uyluk bölgesinde yer almaktadır. Tümörün yerleşimi ve hastanın yaşı bu tümör için olağandışıdır.

Lezyonların çoğu soliterdir ve sıklıkla sebace nevüs zemininde gelişirler (17). Sunduğumuz olguda lezyonlar 2,5 cm genişliğinde 2 adet plak şeklindedir. Lezyonların etrafında hiperpigmente ve patolojik incelemede lentiginöz hiperplazi olarak tanımlanan alanlar görülmektedir. Lentiginöz hiperplazinin bu lezyonların öncüsü olduğu ya da şans eseri aynı yerde ortaya çıktıklarını ayırt etmek patolojik olarak

mümkün değildir. Literatürde bu vaka lentiginöz hiperplazi zemininde ya da komşuluğunda tanımlanan ilk vakadır.

Siringokistadenoma papilliferum nadir görülen adneksiyal benign bir tümördür. SKP genellikle apokrin farklılaşma gösterse de bazen ektrin farklılaşmada tespit edilmektedir (18).

Tübülopapiller hidroadenom (TPH) (8,10,18) adneksal tümörler içerisinde yeni tariflenmiş ve üzerinde halen tartışma devam eden tanımlamadır. Bu tümör papiller ektrin adenom (PEA) ile tübüler ektrin adenom (TAA) arasındaki yelpazede bir grup lezyonu tariflemek için kullanılır. Bu tanımlama apokrin ve ektrin bezlere doğru değişken derecelerde farklılaşmayı işaret etmektedir ve bu tümörler arasındaki kesin ayrımın yapılmasındaki güçlük nedeniyle böyle bir tanımlamaya ihtiyaç duyulmuştur.

Literatürde tübüler apokrin adenom veya papiller ektrin adenom ile siringokistadenoma papilliferum birlikteliği sekiz olgu sunumunda gösterilmiştir (Tablo 1) (9-16).

Sunulan olguda tümörün bir kısmı hem ektrin hem de apokrin farklılaşma göstermektedir.

KAYNAKLAR

1. Pincus H: Life history of naevus syringadenomatosus papilliferus. *AMA Arch Derm Syphilol*, 69:305-322, 1954.
2. Hashimoto K: Syringocystadenoma papilliferum: an electron microscopic study. *Arc Dermatol Forsch*, 245:353-369, 1972.
3. Helwig EB, Hackney VC: Syringocystadenoma papilliferum. *Arch Dermatol*, 71:361-372, 1955.
4. Mammino JJ, Vidmar DA: Syringocystadenoma papilliferum. *Int J Dermatol*, 30:763-766, 1991.
5. Fujita M, Kobayashi M: Syringocystadenoma papilliferum associated with poroma folliculare. *J Dermatol*, 13:480-482, 1986.
6. Niizuma K: Syringocystadenoma papilliferum developed from giant comedo: a case report. *Tokai J Exp Clin Med*, 11:47-50, 1986.
7. Shams PN, Hardy TG, El-Bahrawy M, Joshi N: Syringocystadenoma papilliferum of the eyelid in a young girl. *Ophthalm Plast Reconstr Surg*, 22:1:67-69, 2006.
8. Falck VG, Jordaan HF: Papillary eccrine adenoma: a tubulopapillary hidroadenoma with eccrine differentiation. *Am J Dermatopathol*, 8:64-72, 1986.
9. Pai-Jui Hsu, Chao-Hong Liu: Mixed tubulopapillary hidroadenoma and syringocystadenoma papilliferum occurring as a verrucous tumor. *J of Cutan Pathol*, 30:206-210, 2003.
10. Ishiko A, Shimizu H, Inamoto N, Nakamura K: Is tubular apocrine adenoma a distinct clinical entity? *Am J Dermatopathol*, 17:482-487, 1995.
11. Civatte J, Belaich S, Lauret P: Tubular apocrine adenoma (4 cases). *Ann Dermatol Venerol*, 106:665-669, 1979.
12. Toribio J, Zulaica A, Peteiro C: Tubular apocrine adenoma. *J Cutan Pathol*, 14:114-117, 1987.
13. Ansai S, Watanabe S, Aso K: A case of tubular apocrine adenoma with syringocystadenoma papilliferum. *J Cutan Pathol*, 16:230-236, 1989.
14. Coyne JD, Fitzgibbon JF: Mixed syringocystadenoma papilliferum and papillary eccrine adenoma occurring in a scrotal condyloma. *J Cutan Pathol*, 27:199-201, 2000.
15. Aktepe F, Demir Y, Dilek FH: Tubular apocrine adenoma in association with syringocystadenoma papilliferum. *Dermatol Online J*, 9(1):7, 2003.
16. Epstein BA, Argenyi ZB, Goldstein G, Whitaker D: An unusual presentation of a congenital benign apocrine hamartoma. *J Cutan Pathol*, 17(1):53-58, 1990.
17. Patterson JW, Bonnie FS: Linear syringocystadenoma papilliferum of the thigh. *J Am Acad Dermatol*, 45:139-141, 2001.
18. Klein W, Chan E, Seykora JT: Tumors of the epidermal appendages. In: Elder ED, (ed.) *Lever's histopathology of the skin*, 9th edition, Philadelphia: Lippincott-Raven, 1997, 867-927.

Hem papiller ektrin adenoma hem de tübüler apokrin adenoma benzerlikler görülmektedir. Tübülopapiller adenom tanımlaması ilk defa Flack ve arkadaşları (8) tarafından TAA ve PEA'ya benzerlik gösteren tümörleri tariflemek için kullanılmıştır. Bu olguda da PEA ve TAA ayrımı yapılamadığı için tübülopapiller hidroadenom tanımlaması yapılmıştır.

Bu tümör nadir olarak görüldüğü için habis tümör farklılaşmasını belirlemek ve oranlamak güç olmaktadır. SKP için standart bir tedavi tanımlanmamıştır. Ayrıca SKP olgularında %9 oranında BCC birlikteliği gözlenmiştir (3, 4). Bu gerçekler nedeniyle tümör etrafındaki uydu hiperpigmente lezyonlar ile birlikte 0,5 cm güvenli alan dahil edilerek kas fasyası üzerinden eksize edilmiş ve cilt grefti ile onarılmıştır.

Özetle lentiginöz hiperplazi zemininde yukarıda gelişen mikst tübülopapiller hidroadenom ve siringokistadenoma papilliferum birlikteliğini tarifleyerek literatüre katkıda bulunmayı amaçladık.

(TAA, tübüler apokrin adenom; PEA, papiller ektrin adenom; SKP, siringokistadenoma papilliferum; TPH, tübülopapiller hidroadenom.)