

Л.Я. Идрис¹, М.А. Чундокова¹, А.Н. Смирнов², Е.Л. Туманова¹, Н.С. Корчагина¹, М.А. Голованёв¹¹ Российский национальный исследовательский медицинский университет им. Н.И. Пирогова, Москва, Российская Федерация² Детская городская клиническая больница им. Н.Ф. Филатова, Москва, Российская Федерация

Билатеральная светлоклеточная акантома грудных желез у мальчика 13 лет: клинический случай

Контактная информация:

Чундокова Мадина Арсеновна, доктор медицинских наук, профессор кафедры детской хирургии педиатрического факультета РНИМУ им. Н.И. Пирогова

Адрес: 117997 Москва, ул. Островитянова, д. 1, тел.: +7 (499) 254-01-72, e-mail: cmadina@yandex.ru

Статья поступила: 12.09.2020, принята к печати: 23.10.2020

Обоснование. Акантома Дегоса — редкая доброкачественная опухоль. Типичными признаками заболевания являются локализация на нижних конечностях, на животе и в области передней грудной стенки у пациентов среднего и пожилого возраста (50–70 лет). Описан только один случай светлоклеточной акантомы у пациента 26 лет с атопическим дерматитом и экземой в области ареол. **Описание клинического случая.** В возрасте 11 лет у ребенка (мальчик) появились покраснение и отек в области правой грудной железы. Учитываяотягощенный аллергологический анамнез (атопический дерматит), данное образование было расценено как экзема области ареолы, назначена антигистаминная терапия. Через 3 мес аналогичное образование появилось в области левой грудной железы, терапия не менялась. Периодически из образования появлялись кровянисто-гнойные выделения. Ребенок был проконсультирован по месту жительства дерматологом, эндокринологом и хирургом, поставлен диагноз «Хронический гнойный мастит». Консервативная терапия — без положительной динамики. При госпитализации в возрасте 13 лет обнаружены четко выраженные билатеральные изменения ареол. Образования красного цвета, с неровной поверхностью, отмечается отделяемое желтого цвета, гиперемия вокруг ареолы справа. Размеры образований 2,0×3,0 см слева и 3,0×3,5 см справа. В материале, полученном при биопсии, обнаружена светлоклеточная акантома. Назначено консервативное лечение с использованием пероральных и системных глюкокортикостероидов с положительной динамикой уже на 3-и сут после начала терапии. **Заключение.** Наличие экземы в области соска в сочетании с сукровичным отделяемым требует исключения светлоклеточной акантомы. Показана эффективность консервативной терапии светлоклеточной акантомы с применением глюкокортикостероидов.

Ключевые слова: доброкачественное образование, дети, клинический случай, светлоклеточная акантома, акантома Дегоса, экзема

Для цитирования: Идрис Л.Я., Чундокова М.А., Смирнов А.Н., Туманова Е.Л., Корчагина Н.С., Голованёв М.А. Билатеральная светлоклеточная акантома грудных желез у мальчика 13 лет: клинический случай. Вопросы современной педиатрии. 2020; 19 (5): 359–363. doi: 10.15690/vsp.v19i5.2213

Lamiya Ya. Idris¹, Madina A. Chundokova¹, Alexey N. Smirnov², Elena L. Tumanova¹, Natalia S. Korchagina¹, Maxim A. Golovanev¹¹ Pirogov Russian National Research Medical University, Moscow, Russian Federation² Children's City Clinical Hospital n.a. N.F. Filatov, Moscow, Russian Federation

Bilateral Pale Cell Acanthoma of Mammary Glands in 13 Years Old Boy: Clinical Case

Background. Degos acanthoma is rare benign tumor. Typical signs of this disease are localization on the lower limbs, abdomen and anterior chest in middle-aged and elderly patients (50–70 years old). The only one clinical case of pale cell acanthoma with the atopic dermatitis, and eczema in the area of areoles in the 26 years old patient was described. **Clinical Case Description.** The boy had redness and swelling in the area of the right mammary gland at the age of 11 years. This mass lesion was regarded as the eczema of the areola region due to burdened allergic history (atopic dermatitis), thus, antihistamine therapy was prescribed. Similar lesion has appeared in the area of the left areola 3 months later, the same therapy was used. Sanio-purulent discharge was occasionally noted from the lesions. The child was consulted by dermatologist, endocrinologist and surgeon at the place of residence, and diagnosed with chronic purulent mastitis. Conservative therapy had no positive dynamics. Bilateral changes in areoles were revealed during hospitalization at the age of 13 years. There were red lesions with non-homogenous surface, yellow discharge, hyperemia around the right areola. The lesion sizes were 2.0×3.0 cm on the left and 3.0×3.5 cm on the right side. Biopsy has revealed pale cell acanthoma. Conservative treatment with oral and systemic glucocorticosteroids was prescribed, positive dynamics was obtained for 3 days after the therapy initiation. **Conclusion.** The presence of eczema in the area of the nipple associated with sanio-serous discharge requires the differential diagnosis with pale cell acanthoma. The conservative therapy (with glucocorticosteroids) efficacy for pale cell acanthoma is shown.

Key words: benign tumor, children, clinical case, pale cell acanthoma, Degos acanthoma, eczema

For citation: Idris Lamiya Ya., Chundokova Madina A., Smirnov Alexey N., Tumanova Elena L., Korchagina Natalia S., Golovanev Maxim A. Bilateral Pale Cell Acanthoma of Mammary Glands in 13 Years Old Boy: Clinical Case. Voprosy sovremennoi pediatrii — Current Pediatrics. 2020; 19 (5): 359–363. doi: 10.15690/vsp.v19i5.2213

ОБОСНОВАНИЕ

Светлоклеточная акантома была впервые описана R. Degos и соавт. в 1962 г. [1]. Это редкая доброкачественная опухоль эпидермального происхождения с характерными клиническими и гистологическими признаками. Обычно это единичные красные или коричневые папулы, блестящие узелки или куполообразные бляшки размером 2–20 мм с коркой или чешуйчатой поверхностью, источающие прозрачную желтую жидкость или кровь [1]. Опухоль локализуется преимущественно на нижних конечностях у пациентов среднего и пожилого возраста (50–70 лет) [1], на животе и в области передней грудной клетки [1], более редкие локализации — сосок/ареола, нижняя губа, палец стопы, кисти, половые органы, пупок, кожа головы [1]. О светлоклеточной акантоме в области соска/ареолы у 23-летней корейской девушки, страдающей атопическим дерматитом, впервые сообщили в 1999 г. [2]. До 2012 г. светлоклеточная акантома была зарегистрирована только у девушек [3, 4, 5]. Однако в 2012 г. впервые описан случай акантомы Дегоса у молодого человека 26 лет с атопическим дерматитом и экземой в области ареол [5]. Описания случаев акантомы Дегоса в области ареол у мальчиков ранее не публиковались. Распространенность заболевания не зависит от пола или расовой принадлежности [6].

Этиопатогенез светлоклеточной акантомы до конца не определен. Обсуждают две гипотезы: акантома Дегоса — доброкачественное эпидермальное новообразование или острый воспалительный дерматоз [4]. При дерматоскопии обнаруживается характерная картина: точечные кровеносные сосуды, расположенные змееобразно («жемчужное ожерелье») [7, 8]. Однако достоверный диагноз может быть установлен только на основании результатов биопсии. При морфологическом исследовании обнаруживается четко выраженный псориазоподобный акантоз с бледными кератиноцитами (светлые клетки), с высокой внутриклеточной гликогеновой нагрузкой, положительной ШИК-реакцией, нейтрофильным эксцитозом, расширенными кровеносными сосудами дермы [9]. Дифференциальную диагностику светлоклеточной акантомы проводят с псориазом, пиогенной гранулемой, дерматофибромой, кератомой, эккринной поромой, четко выраженной гидраденомой, актиническим кератозом, болезнью Боуэна, базальноклеточной и спиноцеллюлярной карциномой, меланотической меланомой [10].

Были предложены различные способы лечения акантомы Дегоса. Хирургическое иссечение и криодеструкция в настоящее время признаны наиболее эффективными методами [11]. Однако в результате такого лечения часто

остаются шрамы, что приводит к нарушению психологического состояния больного [12]. Лекарственная терапия включает местные глюкокортикостероиды. Некоторые авторы сообщают об использовании для лечения светлоклеточной акантомы кальципотриола с хорошим ответом [13].

КЛИНИЧЕСКИЙ ПРИМЕР

О пациенте

Мальчик, возраст 13 лет, госпитализирован в отделение гнойной хирургии Детской городской клинической больницы (ДГКБ) с жалобами на наличие образований в области обеих ареол, которые появились около двух лет назад. Поражения вызывали у ребенка дискомфорт, отмечались постоянный зуд, усиливающийся в ночное время, болезненность и отделяемое желтого цвета в большом количестве. По месту жительства был поставлен диагноз «Хронический гнойный мастит», назначено лечение (повязки с левомеколем), без эффекта.

Физикальная диагностика

При поступлении в ДГКБ состояние ребенка расценено как средней степени тяжести. Не лихорадит. В области локтевых и коленных сгибов, сгибательных поверхностей голеностопных и лучезапястных суставов, на задней поверхности шеи, в заушных областях отмечаются высыпания в стадии разрешения (шелушение с участками гиперпигментации). Ребенок тревожен. Эмоционально лабилен, замкнут. Стигмы дисэмбриогенеза. Телосложение астеническое. Лицо симметричное. Зрачки OS = OD, фотореакция содружественная. Девиации языка нет. Мышечный тонус — D = S. Координация не нарушена.

Status localis

При осмотре грудных желез выявлены четко выраженные билатеральные изменения ареол (рис. 1). Образования красного цвета, с неровной поверхностью, отмечается отделяемое желтого цвета, гиперемия вокруг ареолы справа. Размеры образований 2,0×3,0 см слева и 3,0×3,5 см справа.

Предварительный диагноз

Мастит?

Результаты инструментальных исследований и консультации (приведены в порядке выполнения в стационаре)

Ультразвуковое исследование грудных желез: размер ткани правой грудной железы 23×9 мм, неоднородной структуры, сниженной эхогенности, без полостей, при

Рис. 1. Мальчик, возраст 13 лет. Вид грудных желез при поступлении

Fig. 1. The boy, 13 years old. Mammary glands at admission



Примечание. А — правая грудная железа, Б — общий вид, В — левая грудная железа. Источник: Идрис Л.Я. и соавт., 2020.

Note. A — right mammary gland, Б — general appearance, В — left mammary gland. Source: Idris L.Ya. et al., 2020.

цветовом доплеровском картировании (ЦДК) кровотока усилен, окружающая кожа утолщена; кожа в области соска утолщена до 3 мм, отечна, с усилением кровотока при ЦДК. Размер ткани левой грудной железы 25×8 мм, неоднородной структуры, сниженной экзогенности, без полостей, при ЦДК кровотока усилен, окружающая кожа утолщена; кожа в области соска утолщена до 3 мм, отечна, с усилением кровотока при ЦДК.

Консультация онколога: рабдомиосаркома? Рекомендовано проведение компьютерной томографии с целью оценки состояния регионарных лимфоузлов и исключения отдаленных метастазов, а также пункционной биопсии.

КТ органов грудной клетки: очаговых и инфильтративных изменений в легких не выявлено. Множественности, уплотнения, обызвествления, гиперплазии внутригрудных лимфатических узлов не отмечено. Костно-деструктивных изменений не обнаружено. Отмечается увеличение размеров грудных желез справа 25×17×10 мм, слева 20×15×14 мм, контрастирование без особенностей. Кожа вокруг сосков отечна, утолщена до 3,5 мм, повышенного контрастирования. Очаговых и инфильтративных изменений не определяется. Лимфатические узлы средостения не изменены. Костно-деструктивных изменений не визуализируется.

Билатеральная биопсия области ареол (рис. 2): выраженный акантоз эпидермиса с анастомозированием неравномерно удлиненных эпидермальных гребней. В шиповатом слое эпидермиса — очаги спонгиоза. Вокруг полнокровных сосудов дермы умеренная гистиолимфоцитарная инфильтрация с примесью эозинофильных гранулоцитов. Отмечается экзоцитоз единичных

эозинофилов в эпидермис. При ШИК-реакции окрашивается цитоплазма эпителиоцитов, клеток воспалительного инфильтрата.

Консультация невролога: на момент осмотра в сознании, активных жалоб не предъявляет. Тревожен. Эмоционально лабилен, замкнут. Стигмы дисэмбриогенеза. Телосложение астеническое. Кожный покров сухой. В области правой и левой ареол образования красного цвета 2,5×3,5 см, скудное отделяемое желтоватого цвета. Лицо симметричное.

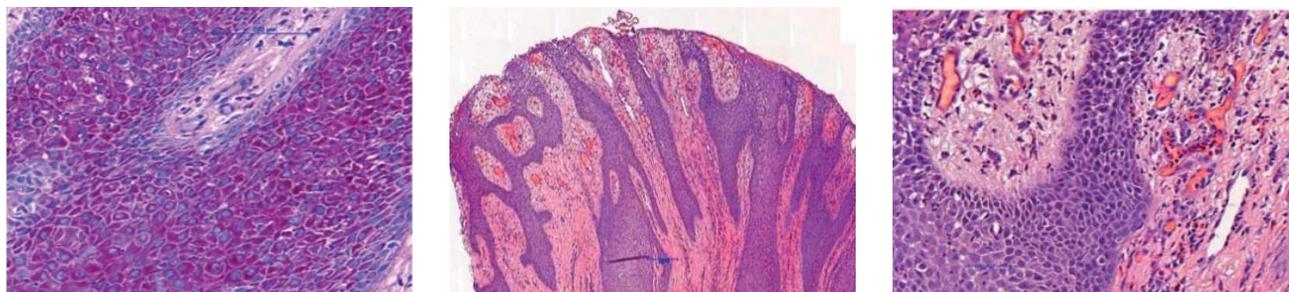
Клинический диагноз

Учитывая данные анамнеза (жалобы, давность заболевания, отсутствие положительной динамики от проведенного консервативного лечения), объективного и физикального осмотра (поведение, внешний вид ребенка, грудных желез), проведенного инструментального обследования (биопсия образований — светлоклеточная акантома), выставлен диагноз: «Светлоклеточная акантома. Астеноневротический синдром резидуально-органического генеза».

Динамика и исходы

В процессе обследования и уточнения диагноза местно применяли повязки с мазью левомеколь. С целью уменьшения интенсивности зуда в области грудных желез назначена антигистаминная терапия: хлоропирамин 12,5 мг 2 раза/сут. За время нахождения и обследования в стационаре состояние ребенка ухудшилось (рис. 3). В области ареол отмечались сильные расчесы и раны, объем экссудата из области ареол составлял около 30–40 мл/сут.

Рис. 2. Мальчик, возраст 13 лет. Результат билатеральной биопсии области ареолы справа
Fig. 2. The boy, 13 years old. Results of bilateral biopsy from right areola



Источник: Идрис Л.Я. и соавт., 2020.
Source: Idris L.Ya. et al., 2020.

Рис. 3. Мальчик, возраст 13 лет. Состояние грудных желез в динамике (6-е сут госпитализации)
Fig. 3. The boy, 13 years old. Dynamics of mammary glands condition (6th day of hospitalization)



Примечание. А — правая грудная железа, Б — общий вид, В — левая грудная железа.
Источник: Идрис Л.Я. и соавт., 2020.
Note. А — right mammary gland, Б — general appearance, В — left mammary gland.
Source: Idris L.Ya. et al., 2020.

Рис. 4. Мальчик, возраст 13 лет. Состояние грудных желез на 3-и сут после начала применения аппликаций с метилпреднизолона ацепонатом 0,1%

Fig. 4. The boy, 13 years old. Mammary glands on the 3rd day after initiation of treatment with 0.1% methylprednisolone aceponate



Примечание. А — правая грудная железа, Б — левая грудная железа.

Источник: Идрис Л.Я. и соавт., 2020.

Note. А — right mammary gland, Б — left mammary gland.

Source: Idris L.Ya. et al., 2020.

После получения результата биопсии в качестве лечения назначены аппликации метилпреднизолона ацепоната 0,1% на область грудных желез. На 3-и сут от начала лечения отмечена положительная динамика (рис. 4). Объем профузного отделяемого составил 5 мл/сут. К терапии добавлен системный глюкокортикостероид метилпреднизолон перорально в дозировке 8 мг 1 раз/сут.

На 5-е сут после начала применения системного глюкокортикостероида выделения из области грудных желез прекратились, отек и инфильтрат в области ареол резко уменьшились (рис. 5). Жалобы на зуд и дискомфорт исчезли. Ребенок выписан домой на поддерживающей терапии: метилпреднизолон 8 мг 1 раз/сут с постепенным уменьшением разовой дозировки на 2 мг/сут каждые 2 нед до 4 мг/сут и ежедневные повязки с мазью метилпреднизолона ацепонат 0,1% на область ареол на месяц до повторного осмотра.

Прогноз

Согласно опубликованным данным, регресс образования отмечается через год после назначения консервативной терапии — аппликаций мазей с глюкокортикостероидом и перорального приема системных глюкокортикостероидов [12–14]. J. Garcia-Gavin и соавт. сообщили об одном случае, когда несколько светлоклеточных акантом спонтанно регрессировали в течение года [15].

Временная шкала (рис. 6)

Рис. 6. Мальчик, 13 лет, хронология течения болезни, ключевые события и прогноз

Fig. 6. The boy, 13 years old, clinical course, key events and prognosis

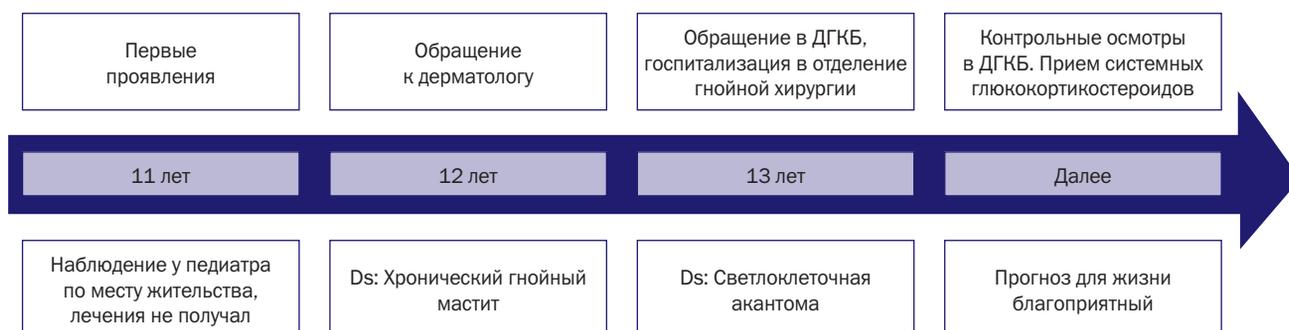
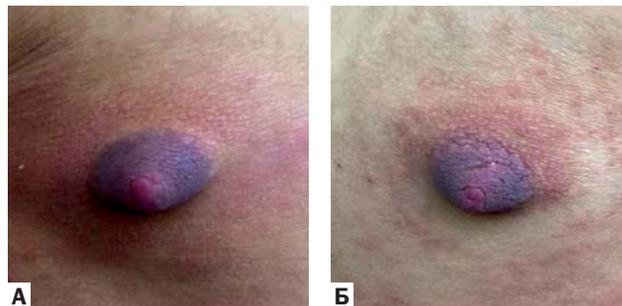


Рис. 5. Мальчик, возраст 13 лет. Состояние грудных желез на 5-е сут после начала применения системного глюкокортикостероида

Fig. 5. The boy, 13 years old. Mammary glands on the 5th day after initiation of treatment with systemic glucocorticosteroid



Примечание. А — правая грудная железа, Б — левая грудная железа.

Источник: Идрис Л.Я. и соавт., 2020.

Note. А — right mammary gland, Б — left mammary gland.

Source: Idris L.Ya. et al., 2020.

ОБСУЖДЕНИЕ

Акантома Дегоса — редкая патология, которая, по одним данным, является доброкачественным образованием, по другим — относится к воспалительным заболеваниям кожи. Чаще встречается у людей среднего и пожилого возраста с преимущественной локализацией на конечностях и животе. Локализация акантомы в области ареолы встречается крайне редко.

В статье представлено описание заболевания у 13-летнего мальчика с локализацией в области грудных желез. Приведенный случай из практики показывает, что перечисленные выше характеристики привели к трудностям диагностики и к неправильному лечению. В описанном нами случае ребенок имел только два из вышеперечисленных диагностических критериев акантомы (изменения ареол и геморрагическое отделяемое) и ряд нехарактерных признаков (возраст пациента, локализация образования, длительность заболевания), которые не сразу позволили клинически расценить это заболевание как акантому Дегоса. Дифференциальная диагностика проводилась в первую очередь с хроническим воспалительным процессом (гнойный мастит на фоне постоянного инфицирования во время расчесов), кожными заболеваниями (экзема соска, папиллома), злокачественными образованиями (рак Педжета, рабдомиосаркома). Для исключения всех вышеперечисленных состояний пациенту были проведены необходимые диагностические мероприятия, в частности УЗИ области грудных желез, КТ органов

грудной клетки, биопсия образований. Последнее играет ключевую роль в диагностике светлоклеточной акантомы.

Только биопсия и морфологическое исследование позволили провести дифференциальную диагностику и назначить адекватную терапию. Существуют три способа лечения данного заболевания, основным из которых является хирургический метод, которому посвящено большое число публикаций, показывающих неплохой клинический результат в виде отсутствия рецидива после иссечения образований. Однако у этого метода есть существенный недостаток. По данным исследований, у многих пациентов отмечается нарушение психологического состояния из-за деформирующих грудную железу послеоперационных рубцов. Именно поэтому консервативное лечение с местным и системным применением глюкокортикостероидов является разумной альтернативой, хоть и с меньшим опытом применения [15].

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Светлоклеточная акантома должна рассматриваться при дифференциальной диагностике в числе заболеваний, сопровождающихся изменениями в области ареол грудных желез, мокнутием, зудом. Представленное описание клинического случая показывает хороший результат консервативного лечения с применением глюкокортикостероидов местно и системно (перорально). После начала лечения положительная динамика заболевания отмечена достаточно быстро — через 3 сут.

ИНФОРМИРОВАННОЕ СОГЛАСИЕ

Согласие родителей пациента на публикацию клинического случая не получали. Представленные в настоя-

щей статье сведения обезличены, идентифицирующая информация удалена.

INFORMED CONSENT

Patient's parents did not sign the consent on publication of clinical case. All data in this article was depersonalized, identifying information was deleted.

ИСТОЧНИК ФИНАНСИРОВАНИЯ

Не указан.

FINANCING SOURCE

Not specified.

КОНФЛИКТ ИНТЕРЕСОВ

Авторы статьи подтвердили отсутствие конфликта интересов, о котором необходимо сообщить.

CONFLICT OF INTERESTS

Not declared.

ORCID

Л. Я. Идрис

<https://orcid.org/0000-0002-4902-7939>

М. А. Чундокова

<https://orcid.org/0000-0001-5562-8397>

Н. С. Корчагина

<https://orcid.org/0000-0001-5562-8397>

Е. Л. Туманова

<https://orcid.org/0000-003-1149-4061>

М. А. Голованёв

<https://orcid.org/0000-0002-5512-9894>

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ / REFERENCES

1. Degos R, Delort J, Civatte J, Poiars Baptista A. Epidermal tumor with an unusual appearance: Clear cell acanthoma. *Ann Dermatol Syphiligr (Paris)*. 1962;89:361–371.
2. Kim D-H, Kim C-W, Kang S-J, Kim T-Y. A case of clear cell acanthoma presenting as nipple eczema. *Br J Dermatol*. 1999;141(5):950–951. doi: 10.1046/j.1365-2133.1999.03191.x.
3. Um SH, Oh CW. Three cases of clear cell acanthoma on nipple and areola. *Korean J Dermatol*. 2003;41(1):85–88.
4. Park SY, Jung JY, Na JI, et al. A case of polypoid clear cell acanthoma on the nipple. *Ann Dermatol*. 2010;22(3):337–340. doi: 10.5021/ad.2010.22.3.337.
5. Nazzaro G, Coggi A, Gianotti R. A 26-year-old man with an eczematous lesion on the nipple. *Arch Dermatol*. 2012;148(5):641–646. doi: 10.1001/archderm.148.5.641-b.
6. Brownstein MH, Fernando S, Shapiro L. Clear cell acanthoma: clinicopathologic analysis of 37 new cases. *Am J Clin Pathol*. 1973;59(3):306–311. doi: 10.1093/ajcp/59.3.306.
7. Cunha DG, Kassuga-Roisman LEBP, Silveira LKCB, Macedo FC. Dermoscopic features of clear cell acanthoma. *An Bras Dermatol*. 2018;93(3):449–450. doi: 10.1590/abd1806-4841.20186977.
8. Lyons G, Chamberlain AJ, Kelly JW. Dermoscopic features of clear cell acanthoma: five new cases and a review of existing published cases. *Australas J Dermatol*. 2015;56(3):20611. doi: 10.1111/ajd.12206.
9. Pătrașcu V, Geoloaica L, Ciurea RN. Clear Cell Acanthoma with Atypical Location — Case Report and Literature Review. *Curr Health Sci J*. 2018;44(4):397–400. doi: 10.12865/CHSJ.44.04.13.
10. Breer WA. Asymptomatic papule on the lower leg. Clear-cell acanthoma. *Arch Dermatol*. 1993;129(11):1506–1510. doi: 10.1001/archderm.1993.01680320143020.
11. Benedetto CJ, Athalye L. Clear Cell Acanthoma In: *StatPearls*. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2020.
12. González-Guerra E, Rodríguez JR, Casado AF, et al. Bilateral clear cell acanthoma of the areola and nipple: good response to topical corticosteroids. *Bran An Bras Dermatol*. 2017;92(5 Suppl 1):27–29. doi: 10.1590/abd1806-4841.20175683.
13. Scanni G, Pellacani G. Topical calcipotriol as a new therapeutic option for the treatment of clear cell acanthoma. *An Bras Dermatol*. 2014;89(5):803–805. doi: 10.1590/abd1806-4841.20143079.
14. Kuo K-L, Lo C-S, Lee L, et al. Clear cell acanthoma (CCA)-like lesions of the nipple/areola: A clinicopathological study of 12 cases supporting a nonneoplastic eczematous disease. *J Am Acad Dermatol*. 2019;80(3):749–755. doi:10.1016/j.jaad.2016.07.032.
15. Garcia-Gavin J, Gonzalez-Vilas D, Montero I, et al. Disseminated eruptive clear cell acanthoma with spontaneous regression. Further evidence of an inflammatory origin? *Am J Dermatopathol*. 2011;33(6):599–602. doi: 10.1097/DAD.0b013e3181f078e0.