

С.М. Потапов¹
В.Д. Марковський¹
Н.І. Горголь²
О.В. Кихтенко¹
О.М. Плітень¹

¹ Харківський національний медичний університет

² КНП Харківської обласної ради
«Обласна клінічна лікарня»
Харків, Україна

Надійшла: 04.09.2024

Прийнята: 05.10.2024

DOI: <https://doi.org/10.26641/1997-9665.2024.3.93-97>

УДК: 616.56-006.55-036-08

ХОНДРОЇДНА СИРІНГОМА: КЛІНІЧНИЙ ВИПАДОК

Potapov S.M. , Markovskiy V.D. , Horhol N.I. , Kykhtenko O.V. , Pliten O.M.  Chondroid syringoma: a clinical case.

Kharkiv National Medical University, Communal non-commercial enterprise of the Kharkiv Regional Council "Regional Clinical Hospital", Kharkiv, Ukraine.

ABSTRACT. Background. Chondroid syringoma is a tumor of eccrine sweat glands of mixed origin. This tumor has an extremely low incidence and is poorly studied, therefore its differential diagnostics remains quite complicated. **Objective.** By the example of a medical case to attract attention and raise the awareness of pathologists concerning a rare and poorly studied tumor – chondroid syringoma. **Methods.** Pathomorphological examination of the chondroid syringoma using histological methods. **Results.** A 45-year-old patient underwent a surgical removal of a skin neoplasm in the temporal area. Histologically, the tumor consisted of two components: epithelial and mesenchymal. In the epithelial component tubulo-alveolar and cystic structures were identified. The tubular structures had appearance of numerous narrow glandular branching bands located in the chondromyxoid stroma. Tubulo-alveolar structures had a two-layered glandular lining. In the cystic structures of the tumor single-layered epithelium was revealed, squamous cells were absent. Fibroblasts and single epithelial cells located in the stroma of the tumor resembled cartilage cells. Differential diagnostics of chondroid syringoma is difficult enough, it should be distinguished from other benign tumors, such as cystic basal cell carcinoma, compound naevus, pleomorphic adenoma of the salivary gland, dermatofibroma, cylindroma, syringoma, pilomatrixoma, dermoid cyst, neurofibroma. Also, there are not only benign, but also malignant variants of chondroid syringoma, so in all cases it is necessary to carry out differential diagnostics with malignant variant of this tumor. **Conclusion.** The etiology of chondroid syringoma origin and progression have not yet been definitively explained. It is unknown for what reasons the simultaneous tumorous transformation of the excretory duct of the eccrine sweat gland and the connective tissue of the dermis occurs. Doctors of various specialties should be aware of this tumor to avoid potential diagnostic pitfalls.

Key words: benign tumor, chondroid syringoma, skin neoplasm.

Citation:

Potapov SM, Markovskiy VD, Horhol NI, Kykhtenko OV, Pliten OM. [Chondroid syringoma: a clinical case]. Morphologia. 2024;18(3):93-7. Ukrainian.

DOI: <https://doi.org/10.26641/1997-9665.2024.3.93-97>

 Potapov S.M. 0000-0002-5718-3341;  Markovskiy V.D. 0000-0002-2237-3639;

 Horhol N.I. 0000-0003-2735-0310;  Kykhtenko O.V. 0000-0002-6181-4679;

 Pliten O.M. 0000-0001-6376-9376

✉ pathomorphologist@gmail.com

© Dnipro State Medical University, «Morphologia»

Вступ

Хондроїдна сирінгома є пухлиною екринних потових залоз змішаного (хондроїдно-міксоматозно-епітеліального) генезу, зазвичай доброякісної природи [1-4].

Захворюваність на хондроїдну сирінгому низька і становить менше 0,1% [5-7], а у дітей дана патологія зустрічається ще рідше [8, 9].

Хондроїдна сирінгома частіше зустрічається у пацієнтів чоловічої статі середнього та старшого віку [10]. Згідно літературним джерелам

співвідношення чоловіків та жінок з даною патологією складає від 2:1 до 5:1 [11, 12].

Найбільш поширеними місцями локалізації пухлини є ніс, щока, верхня губа, лоб, підборіддя, шия та волосиста частина голови [5, 7, 13, 14]. Пухлина рідко вражає кінцівки та геніталії [15].

Вперше хондрідна сирингома була описана Hirsch P., Helwig E.B. [13], які визначили п'ять мікроскопічних ознак, характерних для пухлини: гнізда кубічних чи багатокутних клітин; сполучені тубулоальвеолярні структури, вистелені двома або більше рядами кубоподібних клітин; протокові структури, що складаються з одного або двох рядів кубоподібних клітин; поодинокі ороговілі кісти; матриця змінного складу. Хондрідні сирингоми можуть мати всі п'ять характеристик, але ж можуть бути присутні лише деякі з них [13].

Частота рецидивів хондрідної сирингоми точно невідома, але згідно окремих досліджень становить від 2,4 до 10% [14, 16]. Через часточковий характер пухлини її видалення часто буває неадекватним, що призводить до високої частоти рецидивів [17]. Вважається, що найчастіше рецидив виникає внаслідок неповного висічення пухлини або застосування електродесикації [13], тому ексцизійна біопсія залишається найбільш надійним методом запобігання рецидиву [11, 14].

Hornick J.L. та Fletcher C.D. (2003) повідомляють про місцевий рецидив хондрідної сирингоми в 18% спостережень навіть після тотального висічення, при цьому із рецидивом не корелюють жодні клінічні чи гістологічні особливості [18].

Мета

На прикладі клінічного випадку привернути увагу та підвищити обізнаність лікарів-патологоанатомів стосовно рідкісної та слабо вивченої пухлини – хондрідної сирингоми.

Матеріали та методи

У статті представлений клінічний випадок хворого П., у якого було діагновано пухлинне утворення шкіри скроневої ділянки. Пацієнта було госпіталізовано до хірургічно-гінекологічного відділення Комунального некомерційного підприємства Кегичівської селищної ради «Кегичівська центральна районна лікарня», де було проведено хірургічне лікування, а видалений матеріал направлено на патогістологічне дослідження у Комунальне некомерційне підприємство Харківської обласної ради «Обласну клінічну лікарню». Отриманий матеріал було зафіксовано в 10% розчині нейтрального формаліну. Після фіксації матеріал піддавали стандартній проводці через спирти зростаючої концентрації, після чого заливали парафіном. З приготованих таким чином блоків робили серійні зрізи товщиною $4-5 \times 10^{-6}$ м, які забарвлювали гематоксиліном та еозином. Гістологічні методики виконували за прописами, що викладені в інструкціях з гістологічної техніки [19].

Результати та їх обговорення

У хворого П., чоловіка 45 років, в шкірі скроневої ділянки було виявлено утворення кулястої форми, діаметром 1,0 см, з гладкою поверхнею, щільно-еластичної консистенції, шкіра над яким мала злегка почервонілий колір. Дане утворення повільно прогресувало, зростаючи протягом декількох років, і не спричиняло хворому ніяких незручностей. Така клінічна поведінка притаманна більшості випадків хондрідної сирингоми і відмічається багатьма дослідниками [1, 14, 17, 20, 21].

Після хірургічного висічення матеріал було доставлено в патологоанатомічне відділення з клінічним діагнозом «папілома» для уточнення природи пухлини. Макроскопічно утворення було локалізовано в підшкірній клітковині і мало чіткі межі. Гістологічно пухлина складалася з двох компонентів: епітеліального і мезенхімального (Рис. 1), а тканини, що її оточували, мали нормальну будову.

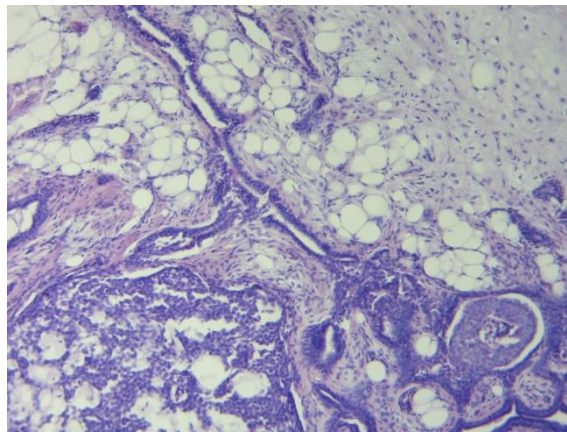


Рис. 1. Два компоненти хондрідної сирингоми: епітеліальний і мезенхімальний. Забарвлення гематоксиліном і еозином. $\times 100$.

В епітеліальному компоненті було визначено тубуло-альвеолярні та кістозні структури. Тубулярні структури мали вигляд численних вузьких залозистих тяжів із розгалуженнями, розташованими у хондроміксоїдній стромі (Рис. 2).

Тубуло-альвеолярні структури мали двошарову залозисту вистілку: клітини, що звернені в просвіт, – кубічної або полігональної форми, а клітини, що розташовані назовні, – плоскі (Рис. 3). Доволі часто просвіти тубулярних структур містили аморфні еозинофільні, PAS-позитивні маси. У деяких ділянках виявляли невеликі кісти, що були вистелені плоским епітелієм. В стромі, яка мала фіброліпоматозну і хондроміксоїдну складову, виявляли поодинокі або у вигляді груп плоскі клітини. Атипові мітози і некрози були відсутні.

Кістозна складова хондрідної сирингоми складалась здебільшого з дрібних порожнин, а також невеликих груп та тяжів епітеліальних клітин. В кістозних структурах пухлини виявлявся

одношаровий епітелій, плоскі клітини були відсутні. Строма пухлини базофільна за рахунок вмісту мукоїдних субстанцій. Фібробласти та окремі епітеліальні клітини, що знаходились в ній, мали світлий ореол, чим нагадували клітини хряща (Рис. 4).

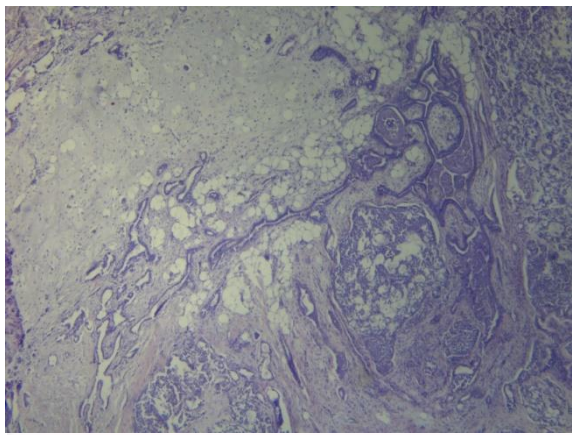


Рис. 2. Тубуло-альвеолярні структури представлені розгалуженими тяжами епітеліальних клітин, що розташовані у хондроміксоїдній стромі. Забарвлення гематоксином і еозином. $\times 40$.

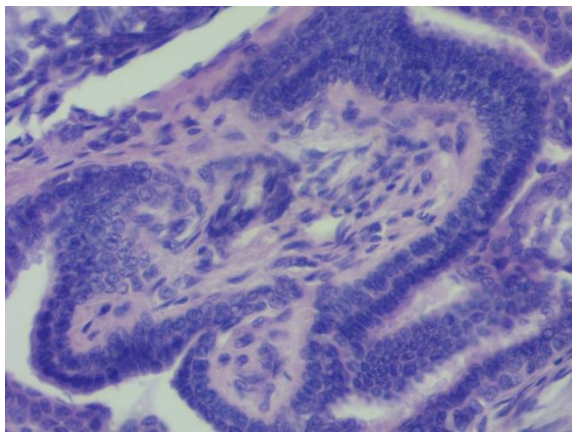


Рис. 3. Двошарова епітеліальна вистілка в тубуло-альвеолярних структурах. Забарвлення гематоксином і еозином. $\times 400$.

Через рідкісну зустрічальність диференціальна діагностика хондронейроїдної сирінгоми доволі складна [14]. Її необхідно відрізняти від інших доброякісних пухлин, таких як кістозна базаліома, складний невус, плеоморфна аденома слинної залози, кіста сальної залози, дерматофіброма, циліндрома, сирінгома, піломатрікома, дермоїдна кіста, нейрофіброма [2, 10, 22, 23].

Незважаючи на відносну рідкість хондронейроїдної сирінгоми, описані не тільки доброякісні, але і злоякісні варіанти пухлини [24], тому в усіх випадках хондронейроїдної сирінгоми необхідно проводити її диференціальну діагностику зі злоякісним варіантом пухлини [24, 25].

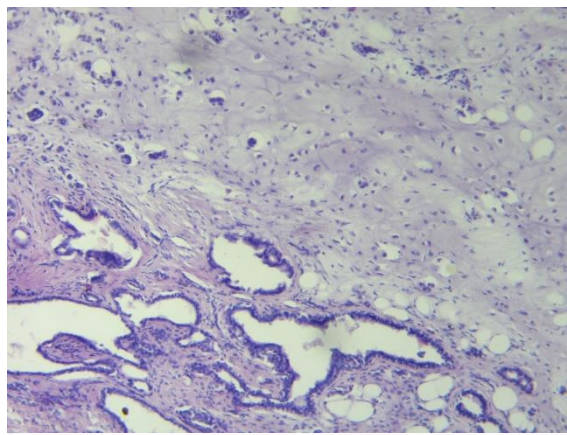


Рис. 4. Кістозні порожнини і дрібні групи та тяжі епітеліальних клітин в будові хондронейроїдної сирінгоми. Забарвлення гематоксином і еозином. $\times 100$.

Злоякісна хондронейроїдна сирінгома зазвичай виникає *de novo*, а не з доброякісного варіанту пухлини, що існувала раніше [17]. На відміну від доброякісної, злоякісна форма зустрічається переважно у жінок, не має вікової схильності, частіше розвивається на кінцівках [26, 27] і, зазвичай, має розмір більший за 3,0 см [1, 17]. Окрім локальної інвазії та швидкого зростання [28] злоякісний варіант хондронейроїдної сирінгоми характеризується рядом гістологічних ознак, які вказують на злоякісність, а саме клітинною атипією, численними мітозами, інфільтративним зростанням, некрозом пухлини, надлишковим мукоїдним матриксом та погано диференційованим хондронейроїдним компонентом [29, 30].

На відміну від злоякісного варіанту пухлини, очікуваними ознаками доброякісної хондронейроїдної сирінгоми є комбінація епітеліальних та міоепітеліальних структур з хондроміксоїдною та фіброзною стромою [25].

При злоякісних хондронейроїдних сирінгомах також спостерігаються великі метастази, і їхнє розташування не обмежується головою та шиєю, а може бути виявлено по всьому тілу [28, 31].

Підсумок

Виходячи з викладеного, слід зауважити, що особлива актуальність дослідження хондронейроїдної сирінгоми пов'язана з її рідкістю та слабкою вивченістю. Причини виникнення і прогресування даної неоплазії до сьогодні не мають остаточних пояснень. Невідомо за яких причин відбувається одночасна пухлинна трансформація ділянки вивідної протоки екринної потової залози і сполучної тканини дерми. Лікарі різних профілів повинні знати про цю пухлину, оскільки через її рідкісну зустрічальність виникають помилкові діагнози.

Інформація про конфлікт інтересів

Потенційних або явних конфліктів інтересів, що пов'язані з цим рукописом, на момент публікації не існує та не передбачається.

Літературні джерела References

1. Vázquez Hernández A, Pérez Campos AE, Gamboa Jiménez TI, Fenton Navarro BF. Giant chondroid syringoma on the upper lip: a case report. *Dermatol Online J*. 2021;27(5). DOI: 10.5070/D327553622. PMID: 34118822
2. Agrawal A, Kumar A, Sinha AK, Kumar B, Sabira KC. Chondroid syringoma. *Singapore Med J*. 2008;49(2):e33-4. PMID: 18301822
3. Aoun A, Dufrenot-Petitjean-Roget L, Amazan E, Derancourt C, Alexandre M, Quist D, Grossin M, Molinié V. Syringome chondroïde cutané [Cutaneous chondroid syringoma]. *Ann Pathol*. 2015;35(4):275-280. French. DOI: 10.1016/j.annpat.2015.04.002. Epub 2015 Jul 16. PMID: 26188668
4. Vrotsos E, Alexis J. Chondroid syringoma. *Cutis*. 2014;93(2):77-78. PMID: 24605350
5. Mebazaa A, Trabelsi S, Denguezli M, Sriha B, Belajouza C, Nouira R. Chondroid syringoma of the arm: an unusual localization. *Dermatol Online J*. 2006;12(1):14. PMID: 16638382
6. Kerimoglu U, Aydingoz U, Ozkaya O, Aksu AE, Ergen FB. MRI of a benign chondroid syringoma. *Br J Radiol*. 2006;79(944):e59-61. DOI: 10.1259/bjr/14399042. PMID: 16861320
7. Min KH, Byun JH, Lim JS, Lee HK, Lee WM, Joo JE. Chondroid Syringoma on Face. *Arch Craniofac Surg*. 2016;17(3):173-175. DOI: 10.7181/acfs.2016.17.3.173. Epub 2016 Sep 23. PMID: 28913278; PMCID: PMC5556809
8. Turhan-Haktanir N, Sahin O, Bukulmez A, Demir Y. Chondroid syringoma in a child. *Pediatr Dermatol*. 2007;24(5):505-507. DOI: 10.1111/j.1525-1470.2007.00504.x. PMID: 17958797
9. Purkayastha P, Thomson R, Wilson Jones N, Ng S. Chondroid syringoma: an unusual presentation in a 7-year-old boy. *BMJ Case Rep*. 2021;14(7):e232943. DOI: 10.1136/bcr-2019-232943. PMID: 34312123; PMCID: PMC8314740
10. Yavuzer R, Başterzi Y, Sari A, Bir F, Sezer C. Chondroid syringoma: a diagnosis more frequent than expected. *Dermatol Surg*. 2003;29(2):179-181. DOI: 10.1046/j.1524-4725.2003.29045.x. PMID: 12562350
11. Chen AH, Moreano EH, Houston B, Funk GF. Chondroid syringoma of the head and neck: clinical management and literature review. *Ear Nose Throat J*. 1996;75(2):104-108. PMID: 8714424
12. Redono C, Rocamora A, Villoria F, Garcia M. Malignant mixed tumor of the skin: malignant chondroid syringoma. *Cancer*. 1982;49(8):1690-1696. DOI: 10.1002/1097-0142(19820415)49:8
13. Hirsch P, Helwig EB. Chondroid syringoma. Mixed tumor of skin, salivary gland type. *Arch Dermatol*. 1961;84:835-847. DOI: 10.1001/archderm.1961.01580170129018. PMID: 13907712
14. Yun YM, Shin S, Kyung H, Song SH, Kang N. Recurrent Chondroid Syringoma of the Alar Rim. *Arch Craniofac Surg*. 2016;17(1):35-38. DOI: 10.7181/acfs.2016.17.1.35. Epub 2016 Mar 21. PMID: 28913251; PMCID: PMC5556721
15. Girgis S, Gillan G, Piper K. Rare benign mixed tumour of the upper lip: A case report. *Ann Med Surg*. 2015;4(4):380-383. DOI: 10.1016/j.amsu.2015.10.001. Erratum in: *Ann Med Surg (Lond)*. 2016 May 30;11:66. DOI: 10.1016/j.amsu.2016.05.015. PMID: 26904190; PMCID: PMC4720717
16. Ceylan A, Celenk F, Poyraz A, Uslu S. Pleomorphic adenoma of the nasal columella. *Pathol Res Pract*. 2008;204(4):273-276. DOI: 10.1016/j.prp.2007.10.014. Epub 2008 Mar 4. PMID: 18295980
17. Sungur N, Uysal A, Gümüş M, Koçer U. An unusual chondroid syringoma. *Dermatol Surg*. 2003;29(9):977-979. PMID: 12930345
18. Hornick JL, Fletcher CD. Myoepithelial tumors of soft tissue: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 101 cases with evaluation of prognostic parameters. *Am J Surg Pathol*. 2003;27(9):1183-1196. DOI: 10.1097/00000478-200309000-00001. PMID: 12960802
19. S Kim Suvarna, Layton C, Bancroft JD, authors. *Bancroft's theory and practice of histological techniques*. 8th. Oxford: Elsevier; 2019.
20. Uyar B, Solak A, Sahin N, Bugdayci H. Giant chondroid syringoma radiologically mimicking malignancy. *Indian J Dermatol*. 2013;58(3):245. DOI: 10.4103/0019-5154.110879. PMID: 23723512; PMCID: PMC3667324
21. Sulochana S, Manoharan M, Anitha. Chondroid syringoma-an unusual presentation. *J Clin Diagn Res*. 2014;8(7):13-14. DOI: 10.7860/JCDR/2014/7567.4627. Epub 2014 Jul 20. PMID: 25177574; PMCID: PMC4149080
22. Gottschalk-Sabag S, Glick T. Chondroid syringoma diagnosed by fine-needle aspiration: a case report. *Diagn Cytopathol*. 1994;10(2):152-155. DOI: 10.1002/dc.2840100211. PMID: 8187595
23. Inoyatov AS, Samarkhodjaeva IA. [Clinic case of syringoma]. *Dermatovenerologiya va estetik tibbiyot*. 2021;1-2:168-171. Russian.
24. Sundling RA, So E, Logan DB. Chondroid Syringoma. *Foot Ankle Spec*. 2017;10(2):167-169. DOI: 10.1177/1938640016666927. Epub 2016 Sep 20. PMID: 27587378
25. Paul K, Sreekar H, Dhanraj P, Lamba S, George SM. Chondroid syringoma with extensive ossification. *Ann Maxillofac Surg*. 2011;1(1):91-92. DOI: 10.4103/2231-0746.83149. PMID: 23483813; PMCID: PMC3591028
26. Sheikh SS, Pennanen M, Montgomery E.

Benign chondroid syringoma: report of a case clinically mimicking a malignant neoplasm. *J Surg Oncol.* 2000;73(4):228-230. DOI: 10.1002/(sici)1096-9098(200004)73:4<228::aid-jso8>3.0.co;2-m. PMID: 10797337

27. Mathiasen RA, Rasgon BM, Rumore G. Malignant chondroid syringoma of the face: a first reported case. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2005;133(2):305-307. DOI: 10.1016/j.otohns.2004.09.139. PMID: 16087034

28. Barnett MD, Wallack MK, Zuretti A, Mesia L, Emery RS, Berson AM. Recurrent malignant chondroid syringoma of the foot: a case report and review of the literature. *Am J Clin Oncol.* 2000;23(3):227-232. DOI: 10.1097/00000421-200006000-00003. PMID: 10857882

29. Argenyi ZB, Balogh K, Goeken JA. Immunohistochemical characterization of chondroid syringomas. *Am J Clin Pathol.* 1988;90(6):662-669. DOI: 10.1093/ajcp/90.6.662. PMID: 2848409

30. Malik R, Saxena A, Kamath N. A rare case of malignant chondroid syringoma of scalp. *Indian Dermatol Online J.* 2013;4(3):236-238. DOI: 10.4103/2229-5178.115533. PMID: 23984246; PMCID: PMC3752488

31. Ishimura E, Iwamoto H, Kobashi Y, Yamabe H, Ichijima K. Malignant chondroid syringoma. Report of a case with widespread metastasis and review of pertinent literature. *Cancer.* 1983;52(10):1966-1973. DOI: 10.1002/1097-0142(19831115)52:10<1966::aid-cncr2820521032>3.0.co;2-7. PMID: 6194872

Потапов С.М., Марковський В.Д., Горголь Н.І., Кихтенко О.В., Плітень О.М. Хондроїдна сирінгома: клінічний випадок.

РЕФЕРАТ. Актуальність. Хондроїдна сирінгома є пухлиною екринних потових залоз змішаного генезу і має вкрай низьку захворюваність та слабку вивченість, через що її диференціальна діагностика залишається доволі складною. **Мета.** На прикладі клінічного випадку привернути увагу та підвищити обізнаність лікарів-патологоанатомів стосовно рідкісної та слабку вивченої пухлини – хондроїдної сирінгоми. **Методи.** Патоморфологічне дослідження хондроїдної сирінгоми із застосуванням гістологічних методів дослідження. **Результати.** 45-річному пацієнту було проведено хірургічне видалення пухлинного утворення шкіри скроневої ділянки. Гістологічно пухлина складалася з двох компонентів: епітеліального і мезенхімального. В епітеліальному компоненті було визначено тубуло-альвеолярні та кістозні структури. Тубулярні структури мали вигляд численних вузьких залозистих тяжів із розгалуженнями, розташованими у хондроміксоїдній стромі. Тубуло-альвеолярні структури мали двошарову залозисту вистілку. В кістозних структурах пухлини виявлявся одношаровий епітелій, плоскі клітини були відсутні. Фібробласти та окремі епітеліальні клітини, що знаходились в стромі пухлини, нагадували клітини хряща. Диференціальна діагностика хондроїдної сирінгоми доволі складна – її необхідно відрізнити від інших доброякісних пухлин, таких як кістозна базаліома, складний неvus, плеоморфна аденома слинної залози, дерматофіброма, циліндрома, сирінгома, піломатрікома, дермоїдна кіста, нейрофіброма. Також існують не тільки доброякісні, але і злоякісні варіанти хондроїдної сирінгоми, тому в усіх випадках необхідно проводити її диференціальну діагностику зі злоякісним варіантом пухлини. **Підсумок.** Етіологія виникнення і прогресування хондроїдної сирінгоми до сьогодні не мають остаточних пояснень. Невідомо за яких причин відбувається одночасна пухлинна трансформація ділянки вивідної протоки екринної потової залози і сполучної тканини дерми. Лікарі різних спеціальностей повинні знати про цю пухлину, щоб уникнути можливих діагностичних помилок.

Ключові слова: доброякісна пухлина, хондроїдна сирінгома, новоутворення шкіри.