

[DOI]10.12016/j.issn.2096-1456.2019.05.009

· 防治实践 ·

## 青少年口腔疣状黄瘤病例报道及文献复习

林琳, 段宁, 王翔, 蒋红柳, 王文梅

南京大学医学院附属口腔医院,南京市口腔医院口腔黏膜病科,江苏南京(210008)

**【摘要】** 目的 探讨青少年疣状黄瘤(verruciform xanthoma, VX)的病因、临床表现、诊断及治疗方法,为临床诊疗提供参考。**方法** 对收治的1例青少年腭部肿物病例的临床资料进行分析,并回顾相关文献。**结果** 该例患者腭部肿物经组织病理学检查证实为疣状黄瘤,手术切除,预后良好。文献回顾分析显示,疣状黄瘤是一种罕见的病因不明的良性黏膜皮肤病变,发生率约0.025%~0.094%,好发于中年人群,无明显性别差异。临床表现与鳞状乳头状瘤、寻常疣、纤维瘤、疣状癌和鳞状细胞癌等多种疾病相似,不易鉴别,需要依靠组织病理学诊断。疣状黄瘤局部切除即可治愈,不易复发。**结论** 在临床中遇到青少年的黏膜孤立性肿物,需进行病理检查,避免过度治疗。

**【关键词】** 疣状黄瘤; 青少年; 疣状癌; 口腔鳞状细胞癌; 人乳头状瘤病毒; 巨噬细胞; 淋巴细胞

**【中图分类号】** R78 **【文献标志码】** A **【文章编号】** 2096-1456(2019)05-0318-03

**【引用著录格式】** 林琳,段宁,王翔,等.青少年口腔疣状黄瘤病例报道及文献复习[J].口腔疾病防治,2019,27(5):318-320.

**Oral verrucous xanthoma in adolescents: a case report and literature review** LIN Lin, DUAN Ning, WANG Xiang, JIANG Hongliu, WANG Wenmei. Department of Oral Mucosa Disease, Nanjing Stomatological Hospital, Medical School of Nanjing University, Nanjing 210008, China

Corresponding author: WANG Wenmei, Email: wangwenmei0102@163.com, Tel: 0086-25-83620220

**【Abstract】 Objective** To explore the etiology, clinical manifestations, diagnosis and treatment of verruciform xanthoma (VX) in adolescents to provide a reference for clinical diagnosis and treatment. **Methods** The clinical data of a case of a palatal mass in a juvenile were analyzed, and the related literature was reviewed. **Results** The palatal mass was proven to be VX by histopathological examination. Surgical resection was performed, and the prognosis was good. A review of the literature shows that VX is a rare benign mucosal skin lesion of an unknown etiology, with an incidence of approximately 0.025%-0.094%; VX is mostly found in middle-aged people, with no significant difference by sex. The clinical manifestations are similar to those of a variety of diseases, such as squamous papilloma, verruca vulgaris, fibroma, warty carcinoma and squamous cell carcinoma, which are not easy to distinguish and require histopathological diagnosis. The treatment of choice is surgical excision, with a low recurrence rate. **Conclusion** In the clinical experience of solitary mucosal masses in juveniles, it is necessary to send biopsy for pathological examination and avoid overtreatment.

**【Key words】** Verrucous xanthoma; Adolescents; Verrucous carcinoma; Oral squamous cell carcinoma; Human papillomavirus; Macrophage; Lymphocyte

1971年Shafer首次报导了15例发生在口腔黏膜的罕见良性疣状病变,并将其命名为疣状黄瘤。1997年,世界卫生组织将疣状黄瘤定义为显

微镜下表现类似于口腔鳞状细胞癌和口腔疣状癌的良好病变。口腔黏膜常见的发生部位包括:牙龈、硬腭等咀嚼黏膜,其次可见于颊、舌、唇、口底等非角化黏膜;口腔外常见的发生部位包括:外阴、阴囊、腹股沟、颈部、肢体、呼吸道和消化道等处<sup>[1-3]</sup>。病变直径一般<2cm,但最大者可达4cm,多数为孤立性损害,少见多发,生长缓慢,一般无症状<sup>[4]</sup>。现就笔者所在科室2018年3月收治的1例青少年口腔疣状黄瘤的临床资料,结合近年来相

**【收稿日期】** 2018-07-17; **【修回日期】** 2018-09-01

**【基金项目】** 国家自然科学基金项目(81570978);江苏省临床医学科技专项(BL2014018)

**【作者简介】** 林琳,医师,硕士,Email:lin.09.11@163.com

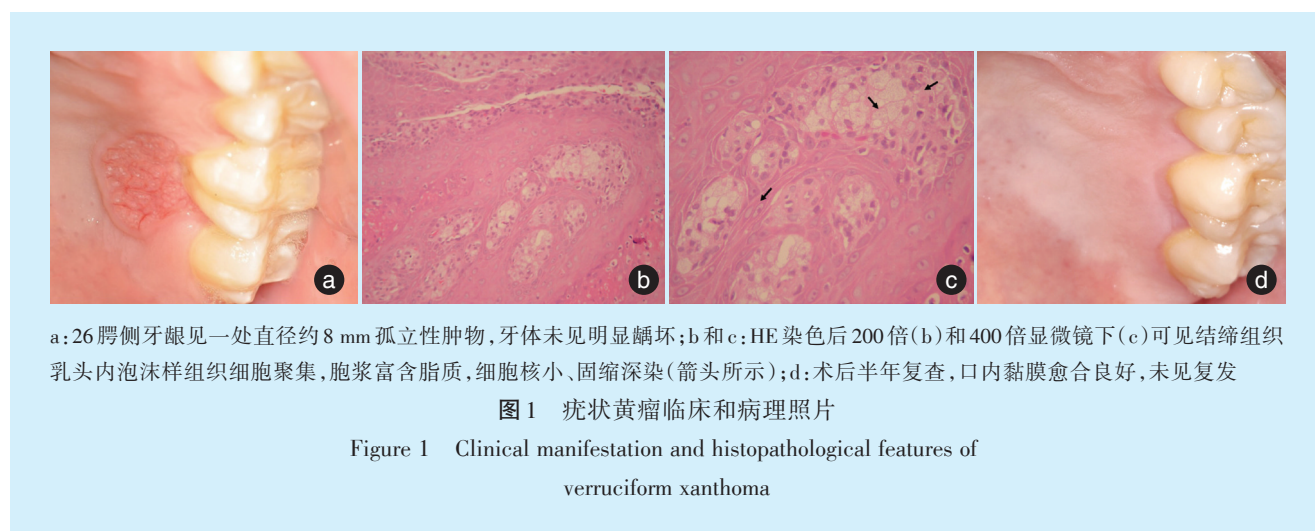
**【通信作者】** 王文梅,主任医师,硕士,Email:wangwenmei0102@163.com, Tel: 0086-25-83620220

关文献进行回顾性分析,报道如下。

## 1 病例资料

患者,男,17岁,2018年3月因左上后牙区牙龈肿物3周来南京市口腔医院口腔黏膜病科就诊,无明显自觉不适,无消长史,曾经抗炎治疗两周无明显效果。既往体健,否认相关系统性疾病史,否认药物食物过敏史。临床检查见26腭侧牙龈一处直径8 mm孤立性肿物,界清,中央稍凹陷,表面颗

粒状,充血发红,无糜烂,周缘增生卷曲,略隆起,无压痛,质软,25、26、27牙体未见明显龋坏,温度测试反应正常,叩诊(-),无松动(图1a)。切取病理损典型处活检,病理结果示:26腭侧病灶黏膜鳞状上皮乳头状增生伴结缔组织乳头内泡沫样组织细胞聚集,考虑为疣状黄瘤(图1b和图1c)。患者住院行“腭部肿物切除术”,术中未见腭骨骨质破坏,手术一并切除腭骨骨膜,未对腭骨水平板做特殊处理。追踪半年未见复发(图1d)。



## 2 讨论

### 2.1 病因和发病机制

疣状黄瘤具体的发病原因尚不清楚,推测其与局部炎症、免疫因素、病毒感染等相关<sup>[5-6]</sup>。目前,大部分学者认为疣状黄瘤的主要致病机理是由于局部的炎症或创伤导致上皮组织破坏,释放脂质,结缔组织中的巨噬细胞吞噬脂质后变为泡沫状,常见的局部刺激因素包括有牙周病、机械创伤、吸烟、饮酒、药物和活动义齿等<sup>[7]</sup>。也有学者认为,免疫因素在疣状黄瘤的发生中占据重要地位,因为与正常组织相比,疣状黄瘤中T淋巴细胞数目增多,朗格汉斯细胞数目明显减少,且有文献报道疣状黄瘤易与一些自身免疫性疾病如移植物抗宿主病、扁平苔藓、寻常型天疱疮、盘状红斑狼疮、银屑病等伴发<sup>[5,8]</sup>。除此之外,也有学者认为疣状黄瘤的发生可能与人乳头瘤病毒(human papillomavirus, HPV)或EB病毒感染相关<sup>[9]</sup>。

### 2.2 流行病学

据文献报道,疣状黄瘤发生率约为0.025%~0.094%,无明显性别差异。Tamiolakis等<sup>[10]</sup>报道的疣状黄瘤共计429例,其中最大年龄89岁,最小2.5岁,

平均年龄51岁。男女发病比例为1.4:1,男性平均发病年龄47.6岁,女性平均发病年龄55.8岁。在50岁以下人群,男女发病率为2.1:1,而在50岁以上人群,男女发病率无明显差异,基本接近1:1,不同地区之间发病率无明显差异。

### 2.3 临床表现

口腔疣状黄瘤通常发生于健康人群,也可与自身免疫性疾病伴发,绝大多数患者实验室检查无明显异常,血、尿、便常规、血脂、血糖、肝功能均在正常范围,胸片正常<sup>[11]</sup>。组织形态学上,病损常表现为单个的丘疹或斑块,边界清晰,外观粗糙,突出于黏膜表面,呈疣状或乳头状增生,也可呈扁平状,疣状增生较为常见,而乳头状增生常被误诊为乳头状瘤,由于上皮层的厚度不同,表面可表现为红色、淡红色、灰白色、黄色、棕黄色<sup>[12]</sup>。

### 2.4 组织病理学表现

由于临床表现不典型,疣状黄瘤的确诊目前主要依靠组织病理学检查。其特征为在结缔组织内可见到大量泡沫细胞,又叫黄瘤细胞,是由释放脂质的上皮细胞被结缔组织中的巨噬细胞吸收所形成的特征性细胞,是诊断的决定性因素,可以与

其他相似病变如黄色瘤、颗粒细胞瘤、鳞状细胞乳头状瘤、寻常疣等相鉴别<sup>[13-14]</sup>。

## 2.5 诊断与鉴别诊断

诊断疣状黄瘤的关键是排除疣状癌,防止过度治疗。若仅依据临床表现,疣状黄瘤易被误诊为鳞状乳头状瘤、寻常疣、纤维瘤、疣状癌和鳞状细胞癌,诊断时需与这些疾病相鉴别。临床上,大多数鳞状乳头状瘤表现为表面发白、质软、带蒂的圆形病损。寻常疣常表现为突出于黏膜的丘疹,表面过度角化,质硬,边界清楚。疣状癌病损通常较大,质软,外形呈菜花状,生长缓慢。鳞状细胞癌可表现为突起的外生性浸润性溃疡,也可表现为肿块,质硬,固定不活动。疣状黄瘤还需要与坏死性涎腺化生鉴别,后者特点是火山口样溃疡,深达骨面又不破坏骨组织<sup>[15]</sup>。虽然目前有文献报道皮肤镜检和反射式共聚焦显微镜在疣状黄瘤的诊断中有重要价值,但是最终确诊仍需依靠组织病理学检查<sup>[16-17]</sup>。

## 2.6 治疗

疣状黄瘤治疗为局部切除,预后良好,复发率极低,不恶变,且疣状、乳头状、扁平状疣状黄瘤在预后方面并无明显差别。但复习文献,曾有1例疣状黄瘤术后6年在同一部位发生高分化型鳞状细胞癌的病例报告<sup>[18]</sup>,应引起临床医师的充分注意,对术后患者进行定期追踪随访。

## 3 小结

在本病例中,患者年龄仅17岁,远低于平均发病年龄,而且临床表现类似于坏死性涎腺化生和鳞状细胞癌,尤其是病损表面颗粒状和周围增生样隆起,易被误诊,通过临床表现不易鉴别,需要依靠组织病理学确诊。由此提示,在临床中遇到青少年的黏膜孤立性肿物,无明显不适症状,且药物治疗无明显效果时,需要考虑疣状黄瘤,避免过度治疗。

### 参考文献

- [1] Lee SR, Jeon JH, Jeong K, et al. Giant vulvar verruciform xanthoma can mimic a common vulvar mass, genital warts[J]. *Am J Obstet Gynecol*, 2017, 216(4): 422-422.
- [2] De Rose AF, Tosi M, Mantica G, et al. Verruciform xanthoma of the penis: a rare benign lesion that simulates carcinoma[J]. *Arch Ital Urol Androl*, 2016, 88(4): 284-285.
- [3] Sette CS, Wachholz PA, Brandao L, et al. Verruciform xanthoma on the penis: an unusual location[J]. *Clin Exp Dermatol*, 2015, 40(7): 807-808.
- [4] Stiff KM, Cohen PR. Vegas (verruciform genital-associated) xanthoma: a comprehensive literature review[J]. *Dermatol Ther*, 2017, 7(1): 65-79.
- [5] Xue R, Su W, Pei X, et al. Multiple verruciform xanthomas following bone marrow transplant[J]. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*, 2016, 82(2): 208-209.
- [6] Beutler BD, Cohen PR. Verruciform genital-associated(Vegas)xanthoma: report of a patient with verruciform xanthoma of the scrotum and literature review[J]. *Dermatol Online J*, 2015, 21(8): 76-79.
- [7] Andrade B, Agostini M, Pires FR, et al. Oral verruciform xanthoma: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 20 cases[J]. *J Cutan Pathol*, 2015, 42(7): 489-495.
- [8] Fuyuno Y, Mitoma C, Ito S, et al. Verruciform xanthoma developing in eroded skin of recessive dystrophic epidermolysis bullosa [J]. *Eur J Dermatol*, 2015, 25(5): 509-510.
- [9] Sinnya S, Wheller L, Carroll M, et al. Verruciform xanthoma of the penis: a rare Australian case[J]. *Australas J Dermatol*, 2015, 56(4): e99-e101.
- [10] Tamiolakis P, Theofilou VI, Tosios KI, et al. Oral verruciform xanthoma: report of 13 new cases and review of the literature[J]. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*, 2018, 23(4): e429-e435.
- [11] Theofilou VI, Sklavounou A, Argyris PP, et al. Oral verruciform xanthoma within lichen planus: a case report and literature review [J]. *Case Rep Dent*, 2018, 23(2): 35-39.
- [12] Capocasale G, Panzarella V, Tozzo P, et al. Oral verruciform xanthoma and erythroplakia associated with chronic graft-versus-host disease: a rare case report and review of the literature[J]. *BMC Res Notes*, 2017, 10(1): 630-631.
- [13] Garcia AS, Pagin O, Da Silva Santos PS, et al. Verruciform xanthoma in the hard palate: a case report and literature review[J]. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*, 2016, 42(6): 383-387.
- [14] Kimura M, Ohto H, Shibata A, et al. Clinicopathological and immunohistochemical characteristics of verruciform xanthoma of the lower gingiva: a case report[J]. *J Clin Diagn Res*, 2016, 10(6): 5-6.
- [15] Walvekar RR, Chaukar DA, Deshpande MS, et al. Verrucous carcinoma of the oral cavity: a clinical and pathological study of 101 cases[J]. *Oral Oncol*, 2009, 45(1): 47-51.
- [16] Arzberger E, Oliveira A, Hofmann-Wellenhof RA, et al. Dermoscopy and reflectance confocal microscopy in verruciform xanthoma of the glans penis[J]. *J Am Acad Dermatol*, 2015, 72(6): e147-e149.
- [17] Ohnishi T, Shiraishi H, Fukaya S, et al. Verruciform xanthoma: report of three patients with comparative dermoscopic study[J]. *Clin Exp Dermatol*, 2015, 40(2): 156-159.
- [18] Takiwaki H, Yokota M, Ahsan K, et al. Squamous cell carcinoma associated with verruciform xanthoma of the penis[J]. *Am J Dermatopathol*, 1996, 18(5): 551-554.

(编辑 张琳,刘曙光)