

报告1例儿童肛门部疣状黄瘤

李静怡¹, 黎贵芸², 杨红霞¹, 代淑贤¹, 陈天波^{3*}

¹云南中医药大学第一临床医学院, 云南 昆明

²云南省中医医院病理科, 云南 昆明

³云南省中医医院外科, 云南 昆明

收稿日期: 2025年2月28日; 录用日期: 2025年3月21日; 发布日期: 2025年3月31日

摘要

目的: 本研究旨在探讨儿童疣状黄瘤(Verruciform Xanthoma, VX)的病因、临床表现、诊断及治疗策略, 以期为临床诊疗实践提供一定参考依据。方法: 分析我院收治的1例女性儿童肛门部VX的临床资料。结果: 手术切除患儿肛门部的肿块后经组织病理学确诊为VX, 术后恢复良好, 未复发, 目前仍在随访中。结论: 临床工作中遇到儿童黏膜肿物需行病理学检查, 避免误诊及过度诊疗。

关键词

疣状黄瘤, 儿童, 黄瘤病, 病理学

A Case Report of Verruciform Xanthoma in the Anus of a Child

Jingyi Li¹, Guiyun Li², Hongxia Yang¹, Shuxian Dai¹, Tianbo Chen^{3*}

¹The First Clinical Medical College, Yunnan University of Chinese Medicine, Kunming Yunnan

²Department of Pathology, Yunnan Provincial Hospital of Traditional Chinese Medicine, Kunming Yunnan

³Department of Surgery, Yunnan Provincial Hospital of Traditional Chinese Medicine, Kunming Yunnan

Received: Feb. 28th, 2025; accepted: Mar. 21st, 2025; published: Mar. 31st, 2025

Abstract

Objective: This study aims to explore the etiology, clinical manifestations, diagnostic methods, and treatment strategies of verruciform xanthoma (VX) in children, with the goal of providing reference for clinical practice. **Methods:** The clinical data of a female pediatric patient with VX located in the anal area, treated at our hospital, were analyzed. **Results:** After surgical excision of the anal mass,

*通讯作者。

文章引用: 李静怡, 黎贵芸, 杨红霞, 代淑贤, 陈天波. 报告 1 例儿童肛门部疣状黄瘤[J]. 临床个性化医学, 2025, 4(2): 476-480. DOI: 10.12677/jcpm.2025.42203

histopathological examination confirmed the diagnosis of VX. The patient had a good postoperative recovery with no recurrence and is currently under follow-up. Conclusion: When encountering mucosal tumors in children in clinical practice, pathological examination is essential to avoid misdiagnosis and overtreatment.

Keywords

Verruciform Xanthoma, Children, Xanthomatosis, Pathology

Copyright © 2025 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



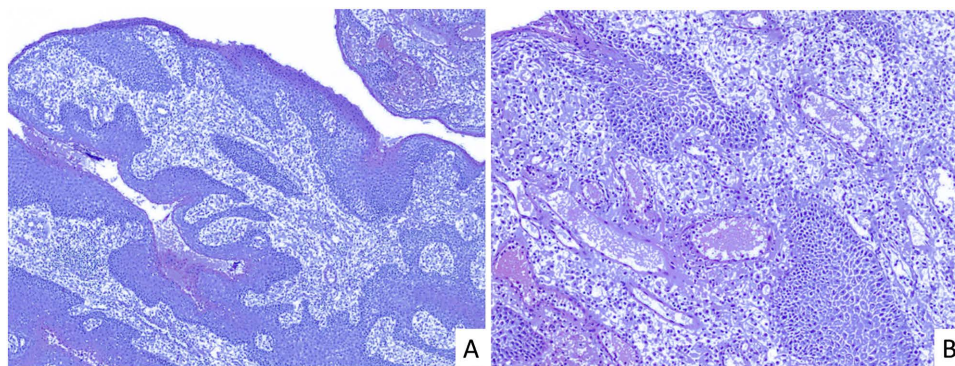
Open Access

1. 引言

疣状黄瘤(Verruciform Xanthoma, VX)是一种发病率极低的皮肤黏膜良性病变。Shafer 于 1971 年将其命名[1]。世界卫生组织在 1997 年正式定义其为在显微镜下呈现与口腔鳞状细胞癌及口腔疣状癌相似表征的良性病变[2]。该病多发于口腔黏膜,也有发生于其他黏膜表面、生殖器等部位的病例报道[3]。发病率为 0.025%~0.094%,主要见于成年人,无明显性别差异[4]。此病鲜少发生于儿童,目前在主流数据库(PubMed, CNKI)尚未见到儿童肛门部发生 VX 的病例。现就本院 2024 年 7 月治疗的 1 例儿童肛门部疣状黄瘤进行报告。

2. 病例摘要

患儿,女,10 岁,2024 年 7 月因“肛门肿物突出伴便血 1 周。”至云南省中医医院就诊,家属代诉患儿摄入辛辣食物 1 天后出现肛门部灼热不适(无疼痛及瘙痒),首次排便(发病第 2 天)时发现肛缘带蒂肿物脱出,需手助复位,每日排便后反复脱出 1~2 次,伴便后手纸染血(鲜红色,量少, <1 mL/日),伴轻度排便不尽感,无肛门坠胀、大便性状改变。病程中未见发热、体重下降或其他系统症状。患儿既往体健,否认相关疾病史,无长期药物应用史,否认药物食物过敏史,月经未至,否认性侵史,否认家族成员中有类似病史。



(A) 鳞状上皮乳头状增生,小灶角化不全(HE ×20); (B) 在间质区域可见大量泡沫细胞的聚集,其间散在分布少量中性粒细胞和淋巴细胞。同时,可见毛细血管的扩张现象。泡沫细胞呈现多边形形态,胞浆丰富并含有脂质,而细胞核则相对较小(HE ×100)。

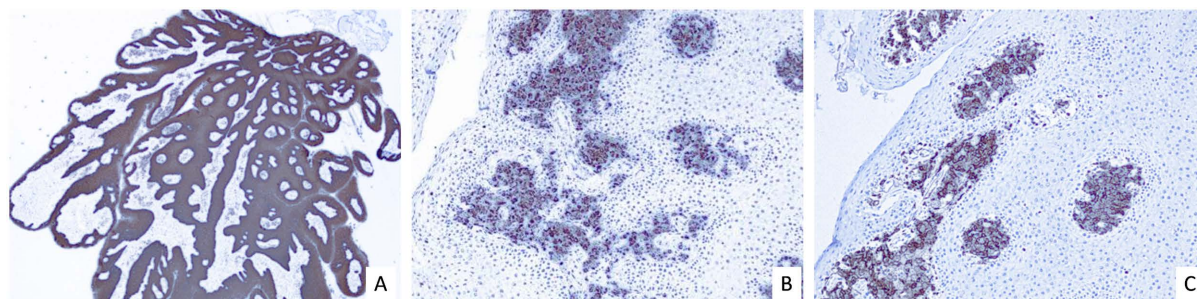
Figure 1. Histopathological imaging of verruciform xanthoma lesion in the anus of the patient

图 1. 本例患者肛门部疣状黄瘤皮损组织病理成像

患儿身高 154 cm, 体重 36 kg, 体质指数(Body Mass Index, BMI)为 15.2 kg/m²。生长发育参数符合同龄儿童正常范围, 系统检查无异常。专科检查(截石位)见肛缘 9 点位带蒂赘生物(蒂宽 1.2 mm), 直径 5 mm, 表面呈疣状颗粒, 基底位于齿状线, 色泽粉红, 无溃疡或渗出。动力学评估: 静息态: 肿物完全位于肛管内(距肛缘 3 mm)。Valsalva 动作: 肿物脱出长度 4 mm, 复位后无即刻回缩。触之质软, 无触痛, 推动复位阻力低, 肛周皮肤弹性正常, 直肠指诊未及异常包块。患儿家属拒绝拍摄, 故无临床图片资料。血常规、肝肾功能、血脂八项以及传染病检查均未发现明显异常。

门诊局麻下行肛门肿物根治性切除术, 术中出血 <5 mL, 创面一期缝合。术后通过组织病理学检查, 示“肛门部疣状黄瘤”(见图 1)。行免疫组织化学检查示: CK (+), CD68 (+), CD163 (+)(见图 2)。

据病史、体征、辅助检查确诊为“肛门部疣状黄瘤”。术后 6 个月复查肛管外观正常, 无复发征象。目前仍在持续监测中(计划随访 ≥ 2 年)。



疣状黄瘤免疫组化染色结果 CK、CD68、CD163(+). 图(A)疣状黄瘤上皮细胞表达 CK, 图(B)、(C)疣状黄瘤间质内泡沫样组织细胞表达 CD163, CD68。

Figure 2. Immunohistochemical imaging of verrucous xanthoma tissue in the anal region of this patient (Envision, ×100)

图 2. 本例患者肛门部疣状黄瘤皮损组织免疫组化成像(Envision, ×100)

3. 讨论

VX 的病因及病理机制尚无明确阐释, 现有研究提示其发病可能与局部炎症、创伤刺激、病毒感染、遗传因素以及免疫异常等多因素相关[5][6]。Toida M 等人认为 VX 是一种炎症反应性增生, 非真性肿瘤[7]; Zegarelli DJ 团队提出上皮变性是脂质释放的关键触发因素[8]; Stiff KM 等人进一步指出局部机械刺激(如摩擦)可诱导慢性炎症, 通过巨噬细胞吞噬游离脂质形成泡沫细胞, 或通过自身免疫紊乱介导上皮凋亡[9]; 此外, 部分学者认为该病类似于扁平苔藓, 也是由自身免疫反应诱导上皮细胞凋亡[10]。Hunter 等人[11]推测, 水肿情况下, 淋巴发育不良或功能不全可导致脂蛋白从淋巴中逸出, 脂蛋白的吞噬作用可能促使 VX 的形成。近年研究发现部分 VX 病例与 CHILD 综合征(先天性半侧发育不良伴鱼鳞病样红皮病及肢体缺陷)相关, 其 NSDHL 基因突变(如 R88X)可致局部胆固醇代谢异常, 诱导角质细胞脂质释放及泡沫细胞聚集[12]。目前学界普遍认为, VX 与全身脂质代谢无明确关联[9][13]。在本病例中患儿的 BMI 指数及血脂检查均正常, 初步支持此结论。本病例的特殊性进一步支持局部刺激引发炎症的观点, 肛门部区域可因其解剖及生理特点(环境潮湿、黏膜-皮肤交界、排便机械摩擦)易发生慢性微创伤, 从而引起局部炎症形成。

VX 生长速度慢, 多为疣状生长, 也可呈火山口状、斑块状、乳头状瘤状等形态, 或仅为皮肤粗糙增厚, 可根据角化程度呈现为粉红色、灰色或黄色。病变通常单独发生、无自觉症状、边界清晰[9]。直径一般<2 cm, 但也有病变直径为 11.5 cm × 9 cm 的报道[9][13]。口腔内常见的发病部位包括牙龈和咀嚼黏膜, 其次为唇、颊、舌及口底等非角化黏膜区域; 口腔外常见的发病部位则包括外阴、阴囊、四肢、呼吸道及消化道等[13]-[16]。临床表现常不明显, 确诊需病理学检查[9]。

其组织病理表现为表皮过度角化伴角化不全,棘细胞层肥厚,真皮内有密集的淋巴细胞为主的炎性细胞浸润,大量泡沫细胞聚集在真皮乳头[17]。镜下见病变区域过度角化或上皮向深部结缔组织增生,或钉突向结缔组织增生或可见裂隙样间隙、黄瘤细胞、朗格汉斯细胞等[18]。

在对 VX 进行诊断的过程中,需要排除疣状癌,以防进行不必要的治疗。临床实践中需与寻常疣、外阴疣状癌、尖锐湿疣、传染性软疣、凯腊增殖性红斑、鲍温样丘疹病、脂溢性角化病、颗粒细胞瘤、鳞状细胞癌等疾病进行鉴别,组织病理学检查可明确诊断[19]-[23]。在本案例中,本病例亦需与肛周常见疾病如痔疮、直肠息肉等相区分,以免误治。

VX 的治疗方案应根据解剖部位、病变特征及患者的基本情况进行个体化选择。目前临床干预手段主要包括外用药物、冷冻治疗、电灼、激光治疗和手术切除,总体预后良好[24],现有循证证据支持将手术切除列为首选方案[23][24],其优势在于可完整移除病灶并获取组织标本以排除恶变,尤其适用于存在机械刺激风险区域(如肛周、口腔)。Colonna 等人指出冷冻治疗对 VX 疗效有限,并报道 VX 对这种治疗有抵抗力[25],Guo 等报道的儿童外阴-肛周 VX 案例进一步印证该观点:患儿冷冻治疗术后 1 年复发,后经外用咪喹莫特成功达到临床治愈[26]。VX 很少复发,但不完全切除病变组织也有复发的可能[26],应引起临床工作者注意,手术过程应注意病损组织切除的完整性。

在本案例中,患者年龄仅 10 岁,远低于发病年龄,且发病部位特殊,易误诊。通过临床表现难以鉴别,需依靠病理检查确诊。由此提示,临床工作中发现儿童孤立性的黏膜肿物需要考虑疣状黄瘤,避免误诊及过度治疗。

声 明

该病例报告已获得病人的知情同意,患儿监护人签署书面知情同意书,授权使用匿名临床资料用于学术发表。患者身份信息已去标识化处理,病理图像不包含可识别特征。

参考文献

- [1] Shafer, W.G. (1971) Verruciform Xanthoma. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology*, **31**, 784-789. [https://doi.org/10.1016/0030-4220\(71\)90134-4](https://doi.org/10.1016/0030-4220(71)90134-4)
- [2] 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.
- [3] 雷铁池. 安德鲁斯临床皮肤病学[M]. 北京: 科学出版社, 2019.
- [4] Capocasale, G., Panzarella, V., Tozzo, P., Mauceri, R., Rodolico, V., Lauritano, D., et al. (2017) Oral Verruciform Xanthoma and Erythroplakia Associated with Chronic Graft-Versus-Host Disease: A Rare Case Report and Review of the Literature. *BMC Research Notes*, **10**, Article No. 631. <https://doi.org/10.1186/s13104-017-2952-7>
- [5] 张莉, 刘彤云. 皮肤疣状黄瘤研究进展[J]. *国际皮肤性病杂志*, 2016, 42(4): 243-246.
- [6] Khaskhely, N.M., Uezato, H., Kamiyama, T., Maruno, M., Kariya, K., Oshiro, M., et al. (2000) Association of Human Papillomavirus Type 6 with a Verruciform Xanthoma. *The American Journal of Dermatopathology*, **22**, 447-452. <https://doi.org/10.1097/00000372-200010000-00012>
- [7] Toida, M. and Koizumi, H. (1993) Verruciform Xanthoma Involving the Lip: A Case Report. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*, **51**, 432-434. [https://doi.org/10.1016/s0278-2391\(10\)80363-5](https://doi.org/10.1016/s0278-2391(10)80363-5)
- [8] Zegarelli, D.J., Zegarelli-Schmidt, E.C. and Zegarelli, E.V. (1975) Verruciform Xanthoma. Further Light and Electron Microscopic Studies, with the Addition of a Third Case. *Oral Surgery, Oral Medicine, Oral Pathology*, **40**, 246-256. [https://doi.org/10.1016/0030-4220\(75\)90156-5](https://doi.org/10.1016/0030-4220(75)90156-5)
- [9] Stiff, K.M. and Cohen, P.R. (2016) Vegas (Verruciform Genital-Associated) Xanthoma: A Comprehensive Literature Review. *Dermatology and Therapy*, **7**, 65-79. <https://doi.org/10.1007/s13555-016-0155-0>
- [10] Oliveira, P., Jaeger, R.G., Cabral, L.A.G., et al. (2001) Verruciform Xanthoma of the Oral Mucosa. Report of Four Cases and a Review of the Literature. *Oral Oncology*, **37**, 326-331. [https://doi.org/10.1016/s1368-8375\(00\)00068-3](https://doi.org/10.1016/s1368-8375(00)00068-3)
- [11] Hunter, J.A., Morley, W.N. and Peterkin, G. (1970) Xanthomatosis Secondary to Lymphoedema. *Journal Transactions of the St. John's Hospital Dermatological Society*, **56**, 143-148.

-
- [12] Juratli, H.A., König, A. and Happle, R. (2019) Tympanoxyloid Verruciform Xanthoma Is a Distinct Feature of child Nevus. *Journal of the European Academy of Dermatology and Venereology*, **34**, e70-e72. <https://doi.org/10.1111/jdv.15917>
- [13] Lee, S.R., Jeon, J.H., Jeong, K. and Chung, H.W. (2017) Giant Vulvar Verruciform Xanthoma Can Mimic a Common Vulvar Mass, Genital Warts. *American Journal of Obstetrics and Gynecology*, **216**, 422.e1-422.e2. <https://doi.org/10.1016/j.ajog.2016.11.1041>
- [14] Takiwaki, H., Yokota, M., Ahsan, K., Yokota, K., Kurokawa, Y. and Ogawa, I. (1996) Squamous Cell Carcinoma Associated with Verruciform Xanthoma of the Penis. *The American Journal of Dermatopathology*, **18**, 551-554. <https://doi.org/10.1097/00000372-199610000-00017>
- [15] De Rose, A.F., Tosi, M., Mantica, G., Piol, N., Toncini, C. and Terrone, C. (2016) Verruciform Xanthoma of the Penis: A Rare Benign Lesion That Simulates Carcinoma. *Archivio Italiano di Urologia e Andrologia*, **88**, 284-285. <https://doi.org/10.4081/aiua.2016.4.284>
- [16] Sette, C.S., Wachholz, P.A., Brandão, L.S.G., Marques, G.F., Casafus, F.S. and Soares, C.T. (2015) Verruciform Xanthoma on the Penis: An Unusual Location. *Clinical and Experimental Dermatology*, **40**, 807-808. <https://doi.org/10.1111/ced.12579>
- [17] 赵辨, 主编. 中国临床皮肤病学[M] 第2版. 南京: 江苏凤凰科学技术出版社, 2017.
- [18] 陈杰, 主编. 临床病理科诊断常规(2019年版)[M]. 第2版. 北京: 中国医药科技出版社, 2020.
- [19] Kraemer, B.B. (1981) Verruciform Xanthoma of the Penis. *Archives of Dermatology*, **117**, 516-518. <https://doi.org/10.1001/archderm.1981.01650080070034>
- [20] Gill, B.J., Chan, A.J. and Hsu, S. (2014) Verruciform Xanthoma. *Dermatology Online Journal*, **20**, Article No. 12. <https://doi.org/10.5070/d3201021253>
- [21] Geiss, D.F., Del Rosso, J.Q. and Murphy, J. (1993) Verruciform Xanthoma of the Glans Penis: A Benign Clinical Simulant of Genital Malignancy. *Cutis*, **51**, 369-372.
- [22] Frankel, M.A., Rhodes, H.E. and Euscher, E.D. (2012) Verruciform Xanthoma in an Adolescent. *Journal of Lower Genital Tract Disease*, **16**, 70-74. <https://doi.org/10.1097/lgt.0b013e31822fcadd>
- [23] Reich, O. and Regauer, S. (2004) Recurrent Verruciform Xanthoma of the Vulva. *International Journal of Gynecological Pathology*, **23**, 75-77. <https://doi.org/10.1097/01.pgp.0000101143.79462.f7>
- [24] He, M., Liu, M. and Tao, X. (2024) A Case of Verruciform Xanthoma of Labia in a Child. *Clinical, Cosmetic and Investigational Dermatology*, **17**, 785-789. <https://doi.org/10.2147/ccid.s432399>
- [25] Colonna, T.M. (2000) A Persistent Lower Lip Lesion. *Archives of Dermatology*, **136**, 665-669.
- [26] Guo, Y., Dang, Y., Toyohara, J.P. and Geng, S. (2013) Successful Treatment of Verruciform Xanthoma with Imiquimod. *Journal of the American Academy of Dermatology*, **69**, e184-e186. <https://doi.org/10.1016/j.jaad.2013.04.026>