



Hidradenoma papilífero. Reporte de dos casos y revisión de la bibliografía

Juan Antonio Vázquez-Velo,¹ Ana Laura Ramírez Terán,² María Elisa Vega-Memije³

RESUMEN

Se reportan dos casos de hidradenoma papilífero, lesión poco frecuente. Se describen las características clínicas e histopatológicas y se revisa la bibliografía relacionada con el padecimiento.

Palabras clave: hidradenoma papilífero, vulva, tumor benigno anexial.

ABSTRACT

We bring two cases of hidradenoma papilliferum, rare injury. We describe the clinical, histopathological and a review of the available literature on the condition.

Key words: Hidradenoma Papilliferum, vulva, benign anexial tumor.

El hidradenoma papilífero es una neoplasia cutánea benigna rara, que se origina en las glándulas sudoríparas apócrinas¹⁻⁶ o en las glándulas ectópicas de la línea de leche. Otros autores han sugerido que se trata de un tumor anexial derivado de las glándulas anogenitales

RÉSUMÉ

Nous rapportons deux cas de hidradenoma papilliferum, une blessure rare. Nous décrivons le histopathologique et revue de la littérature clinique, disponible liée à la maladie.

Mots-clés: hidradenoma papilliferum, de la vulve, tumeur annexielle bénigne.

RESUMO

Relatamos dois casos de hidradenoma papilífero, lesão rara. Nós descrevemos o, histopatológicos e revisou a literatura disponível clínica relacionada à doença.

Palavras-chave: hidradenoma papilífero, vulva, tumor anexial benigno.

semejantes a la glándula mamaria (MLG), lo que explicaría su analogía con el papiloma intraductal mamario.⁴⁻⁶

Sólo lo padecen mujeres entre 20 y 80 años, aunque se han descrito casos en hombres.^{1,2,4} Su localización típica es la región anogenital, específicamente en el labio mayor de la vulva, pese a ello se ha descrito en otras topografías como: glándula mamaria, párpado, oído y nariz, denominándose hidradenoma papilífero ectópico.

Desde el punto de vista histopatológico es una proliferación celular con espacios quísticos, áreas papilares y glandulares donde se observan células con secreción a la dermis por decapitación.⁶

CASOS CLÍNICOS

Caso 1

Paciente de 54 años de edad, originaria y residente del Distrito Federal, ocupación ama de casa. Acudió a consulta por una dermatosis localizada en la región genital, que afectaba el labio mayor izquierdo, en su tercio superior, constituida por una neoformación subcutánea de aspecto quístico,

¹ Dermatólogo, exresidente del Hospital General Dr. Manuel Gea González.

² Médico pasante de Servicio Social, Facultad de Medicina, Universidad Nacional Autónoma de México (UNAM).

³ Dermatóloga, subdirectora de Investigación Biomédica, Hospital General Dr. Manuel Gea González.

Correspondencia: Dra. María Elisa Vega Memije. Hospital General Dr. Manuel Gea González. Calzada de Tlalpan 4800, México 14080 DF. Correo electrónico: dra_elisa_vega@yahoo.com.mx

Recibido: 20 de febrero 2013

Aceptado: mayo 2013

Este artículo debe citarse como: Vázquez-Velo JM, Ramírez-Terán AL, Vega-Memije ME. Hidradenoma papilífero. Reporte de dos casos y revisión de la bibliografía. Ginecol Obstet Mex 2013;81:420-424.

www.femecog.org.mx

aproximadamente de 1 x 1 cm de diámetro, consistencia firme, móvil y no adherida a planos profundos. (Figura 1)

Se extirpó la lesión con impresión diagnóstica de quiste epidermoide contra otro tumor de anexos.

El análisis histopatológico reportó un tejido desprovisto de epitelio. En la dermis se observó una neoformación epitelial bien circunscrita, rodeada de una cápsula fibrosa, constituida por células cilíndricas con núcleos ovales y pálidos próximos en su base y citoplasma eosinófilo claro, que estaban agregadas en islotes y formaban estructuras tubulares y quísticas en donde se apreció secreción por decapitación. Algunos espacios quísticos proyectaban pliegues papilíferos en su interior y otros tenían 1 o 2 hileras de células, una luminal de células secretoras y otra externa de células cuboideas pequeñas con núcleo muy basófilo. Se observó infiltrado inflamatorio constituido por linfocitos, histiocitos, células plasmáticas y eosinófilos que rodeaba la lesión.



Figura 1. Hidradenoma papilífero en el tercio superior del labio mayor izquierdo. Se observa una neoformación amarillenta, bien delimitada. Caso uno.

Caso 2

Paciente de 29 años de edad, originaria y residente de Michoacán. Acudió a consulta debido a una neoformación de aspecto nodular localizada en el área superior del labio menor izquierdo, de 1 cm de diámetro, asintomática y de seis meses de evolución. Con base el diagnóstico de tumor de anexos en estudio se extirpó la lesión. El estudio histopatológico reportó: tejido con epitelio plano estratificado. En la dermis se observó una neoformación epitelial bien circunscrita, rodeada por una cápsula fibrosa, constituida por células cilíndricas, con núcleos ovales y pálidos próximos en su base y citoplasma eosinófilo claro, que se agrupaban en islotes y formaban estructuras tubulares y quísticas con secreción por decapitación. Algunos espacios quísticos proyectaban pliegues papilíferos en su interior y otros mostraron 1 o 2 hileras de células: una luminal de células secretoras y otra externa de células cuboideas pequeñas, con núcleo muy basófilo. (Figura 2)

DISCUSIÓN

El hidradenoma papilífero es una neoplasia cutánea benigna, poco frecuente, que se origina en las glándulas sudoríparas apócrinas.¹⁻⁶ Algunos autores sugieren que se trata de un tumor anexial derivado de otros tejidos, como las glándulas anogenitales parecidas a la glándula mamaria, motivo por el que se considera un análogo del papiloma intraductal mamario.^{4,6}

En un estudio retrospectivo realizado en Ferrara, Italia por Virgili y su grupo² observaron (enero 1989-junio 1999) ocho casos de hidradenoma papilífero en siete mujeres de su clínica, más 25 de otras clínicas. Sólo en dos pacientes el médico sospechó, desde la primera visita, que se trataba de un hidradenoma papilífero. Los diagnósticos clínicos con los que se enviaron las piezas a su estudio histopatológico fueron “nódulo, quiste o úlcera”. Este diagnóstico presuntivo se basó en las características clínicas del tumor, que eran confusas y relacionadas con otras afecciones más frecuentes de la región vulvar, como el granuloma piógeno, angioma, quiste mucoso vestibular, neoplasia, pólipo o hemorroides.³ De acuerdo con lo anterior, el médico que carece de experiencia la mayor parte de las veces lo diagnostica erróneamente.² Ejemplo de ello son los casos aquí comunicados que se diagnosticaron como quiste epidermoide y tumor de anexos. Para aumentar la complejidad de su diagnóstico, Docimo y sus coautores⁵

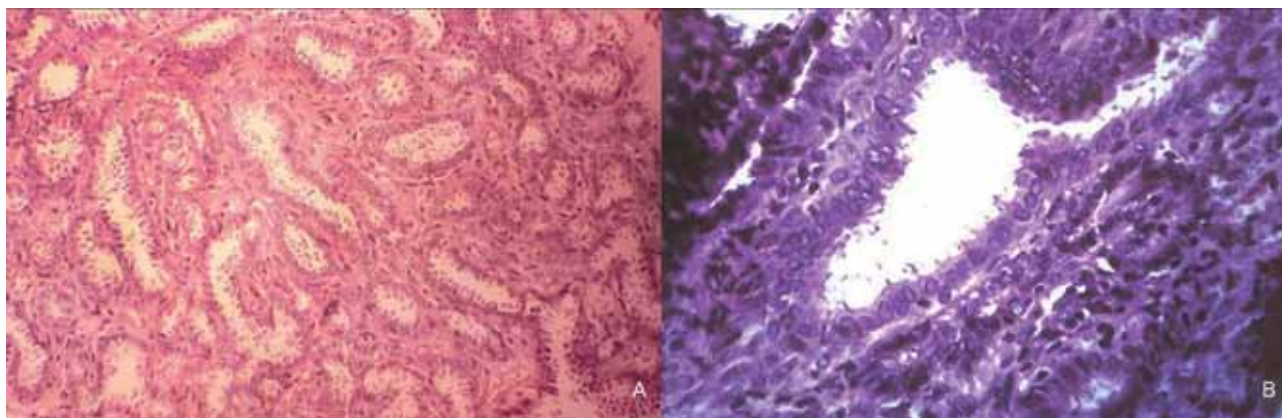


Figura 2. Histopatología del hidradenoma papilífero. **A.** Células cilíndricas con núcleos ovales y pálidos en su base y citoplasma eosinófilo claro, agrupadas en islotes que forman estructuras tubulares y quísticas, de aspecto glandular. H&E 20X. En el corte B se observa la secreción por decapitación. H&E 60X.

describieron, en 2008, el caso de una mujer africana de 43 años de edad que padeció, concomitantemente, un absceso de la glándula de Bartolino e hidradenoma papilífero en el labio mayor izquierdo. Concluyeron que el absceso fue secundario a la obstrucción de los conductos de las glándulas de Bartolino por el hidradenoma papilífero.

Éste ocurre, casi exclusivamente, en mujeres blancas (caucásicas),⁵ característica epidemiológica sorprendente debido a que el número de glándulas sudoríparas apócrinas es tres veces menor en mujeres blancas que en mujeres negras.¹ Es importante destacar que de acuerdo con la bibliografía revisada sólo existe un caso reportado de hidradenoma papilífero en el área genital masculina,¹² sitio donde no es raro encontrar al hidrocistoma apocrino (cistadenoma). En la mujer no existen reportes de esta clase de tumor.

El origen común de las glándulas sudoríparas apócrinas y su gran parecido clínico e histopatológico sugiere que el hidrocistoma apocrino y el hidradenoma papilífero son el mismo tumor, sólo que al aparecer en el área genital masculina y femenina, respectivamente, lo hace con características un tanto diferentes.¹ La edad de aparición es entre 30 y 49 años,^{1-3, 5, 6} con límites de 25 y 66 años.³ También se desconocen casos reportados antes de la pubertad. Nosotros reportamos dos casos en mujeres mestizas de 54 y 29 años de edad. Las glándulas anogenitales similares a la glándula mamaria cerca del tumor y la expresión de receptores de estrógeno y progesterona explican porqué sólo existen reportes de hidradenoma papilífero después

de iniciada la pubertad y la predilección por el género femenino.¹¹

Desde el punto de vista clínico se manifiesta como una lesión solitaria¹⁻³ (se han reportado casos con múltiples hidradenomas¹) de aspecto oval o nodular, firme, móvil, bien delimitado³ y del color de la piel; rara vez se encuentra erosionado o ulcerado. Su crecimiento es lento^{5, 7} y alcanza un tamaño menor a 1.5 cm (con límites de 1-40 mm).^{3, 5, 6} Existen reportes de lesiones de mayor tamaño,³ pero en los casos reportados el tamaño fue de 1 cm al momento de la consulta. Suele ser asintomático, aunque en algunos casos se ha asociado con: prurito, dolor, sangrado o sensación de ardor.^{1, 3}

El sitio más común de aparición es en la vulva, particularmente en el labio mayor.^{1, 3, 5} De acuerdo con Woodworth y su grupo^{5, 7} esta localización se presenta en 38% de los casos, mientras que el labio menor es afectado en 26%. Algunos otros sitios donde suele aparecer son el surco interlabial, el clítoris, el pubis, el perineo y la región perianal o anal.¹⁻¹⁰ La topografía de los casos descritos corresponde con lo reportado en la bibliografía, uno se encontró en el tercio superior del labio mayor derecho y el segundo en el labio menor izquierdo. Pese a que se localiza casi exclusivamente en la región anogenital existen reportes de hidradenoma papilífero ectópico. Las diferencias entre este y el hidradenoma papilífero anogenital son: el sitio, el sexo y la edad de presentación.¹⁴ El primero afecta con mayor frecuencia (60%)^{10, 19} la cabeza y el cuello.^{6, 15} Las lesiones se han encontrado en el párpado (3 lesiones), fren-

te (2 lesiones), cara (sitios no especificados, 2 lesiones), conducto auditivo externo (1 lesión), región retroauricular (1 lesión), piel cabelluda (1 lesión) y nariz (1 lesión). Otros sitios incluyen: axilas, brazos, muslos y espalda.¹⁵ La incidencia entre hombres y mujeres es similar,^{13,14,17,20} con límites de edad de 8 y 78 años,¹⁸ con predominio en edades avanzadas,^{14,17} con tamaño de 0.5 a 6.0 cm y promedio de 1.5 cm, en 85% de los casos.¹⁵

Desde el punto de vista histológico, el hidradenoma se subdivide en cuatro categorías: tubular, quístico, papilar y siringocistoadenoma papilífero.¹¹ Debido a su presentación clínica, el diagnóstico del hidradenoma papilífero casi siempre es histológico, suele encontrarse en la dermis sin conexión con la epidermis, bien delimitado o pseudodelimitado por una cápsula fibrosa de tejido conectivo. Suele ser parcialmente quístico y se compone de dos áreas: papilar y glandular. El lumen está revestido por una o dos capas de células: una luminal de células secretoras con secreción decapitada y una capa externa de pequeñas células cuboidales.¹⁻⁷ Estas imágenes histológicas corresponden a las de nuestros casos. Pese a que la descripción anterior suele ser característica, en la bibliografía consultada se encontraron dos reportes de hidradenoma papilífero con un patrón mixto, compuesto por siringocistoadenoma papilífero y glándulas anogenitales parecidas a la glándula mamaria.^{8,9} Durante el análisis histológico el hidradenoma papilífero debe diferenciarse del adenoma apocrino tubular, el siringocistoadenoma papilífero, el hidrocistoma apocrino y el fibroadenoma apocrino,^{6,10} además de descartar su asociación con alguna enfermedad maligna, como: carcinoma adenoescamoso, carcinoma escamoso, adenocarcinoma,²⁻⁵ enfermedad de Paget, neoplasia melanocítica⁷ y el carcinoma invasivo de células escamosas.⁶ Es tan rara su asociación con malignidad⁶ que en 2008 Vazmitel y sus colaboradores⁴ describieron el segundo caso de carcinoma ductal *in situ* derivado de un hidradenoma papilífero, se encontró asociado con virus del papiloma humano (VPH) serotipo 16, lo que sugiere que este último puede jugar un papel patogénico en el inicio de la malignidad. Por su parte, Duham y su grupo⁷ detectaron virus del papiloma humano en dos grupos, el primero con metaplasia oxifílica en 15 casos donde cuatro fueron positivos, y un grupo control de 16 casos donde sólo tres resultaron positivos, los serotipos encontrados fueron 16, 31, 33, 53 y 56. A pesar de lo descrito en los estudios mencionados aún se desconoce el papel exacto

que desempeña el virus del papiloma humano en la etiología y patogénesis del tumor.⁷

Desde la perspectiva inmunohistoquímica el tumor expresa EMA, CEA, GCDFP-15 y HMFG, además de ser positivo a marcadores de diferenciación apocrina.^{15,16} La línea de células basales mioepiteliales muestra positividad a la actina muscular α , proteína S-100 y actina músculo específica.^{4,16}

El tratamiento del hidradenoma papilífero es una simple escisión completa del tumor, que en la mayoría de los casos es curativa, salvo que no se elimine por completo.² En los casos aquí reportados no existieron recidivas ni complicaciones después de más de dos años de seguimiento.

CONCLUSIONES

El hidradenoma papilífero es un tumor casi siempre benigno, poco común, que debe considerarse como diagnóstico diferencial de lesiones en la vulva y algunos sitios ectópicos, además de ser necesaria su extirpación quirúrgica completa y posterior examen histopatológico para confirmar su diagnóstico. Con el conocimiento de sus características epidemiológicas, clínicas e histopatológicas seguramente aumentará el número de casos reportados.

REFERENCIAS

1. Veraldi S, Verladi-Schianchi R, Marini D. Hidradenoma Papilliferum of the Vulva: Report of a Case Characterized by Unusual Clinical Behaviour. *J Dermatol Surg Oncol* 1990;16:674-676.
2. Virgili A, Marzola A, Corazza M. Vulvar Hidradenoma Papilliferum. A review of 10.5-year's experience. *J Repro Med* 2000;45:616-618.
3. Handa Y, Yamanaka N, Inagaki H, Tomita Y. Large Ulcerated Perianal Hidradenoma Papilliferum in a Young Female. *Dermatol Surg* 2009;29:790-792.
4. Vazmitel M, Spagnolo DV, Nemcova J, Michal M, Kazakov Dv. Hidradenoma Papilliferum with a Ductal Carcinoma in situ Component: Case Report and Review of the Literature. *Am J Dermatopathol* 2008;30:392-394.
5. Docimo S, Shon W, Elkowitz. Bartholin's abscess arising within hidradenoma papilliferum of the vulva: a case report. *Cases Journal* 2008;1:281.
6. Veerana S, Vijaya. Solitary nodule over the labia major. *Indian J Dermatol Venerol Leprol* 2009;75:327-328.
7. Duhan N, Karla R, Singh BS, Rajotia N. Hidradenoma papilliferum of the vulva: case report and review of literature. *Arch Gynecol Obstet* 2011;284:1015-1017.

8. Nishie W, Sawamura D, Mayuzumi M, Takahashi S, Shimizu H. Hidradenoma papilliferum with mixed histopathologic features of syringocystadenoma papilliferum and anogenital mammary-like glands. *J Cutan Pathol* 2004;31:561-4.
9. Parks A, Branch KD, Metcalf J, Underwood P, Young J. Hidradenoma Papilliferum with Mixed Histopathology Features of Syringocystadenoma Papilliferum and Anogenital Mammary-Like Glands: Report of a Case and Review of the Literature. *Am J Dermatopathol* 2012;34:104-9.
10. Minami S, Sadanobu N, Ito T, Natsuaki M, Yamanishi K. Non-anogenital (ectopic) hidradenoma papilliferum with sebaceous differentiation: A case report and review of reported cases. *J Dermat* 2006;33:256-9.
11. Al-Faki YH, Al-Mosallam AR, Al-Sohaibani MO. Periocular hidradenoma papilliferum. *Saudi Journal of Ophthalmology* 2009;23:211-3.
12. Neiva A, Pinto de Almeida M, Costa V, Vasconcelos M, Lopez C, Gomez M. Ectopic Hidradenoma Papilliferum. *Dermatology Research and Practice* 2010. Article ID 709371, 3 pages, 2010. doi:10.1155/2010/709371.
13. Smith F, Shemen L, Guerrieri C, Ismail S. Hidradenoma Papilliferum of Nasal Skin an Apocrine Lesion in an Unusual Location Mimicking Mucosal Neoplasia. *Arch Pathol Lab Med* 2003;127:e86-8.
14. Lee EJ, Shin MK, Haw CK, Lee MH. Two Cases of Hidradenoma Papilliferum of the Nose. *Acta Derm Venereol* 2010;322-3.
15. Lee HJ, Lee D, Jung SY, Hong SK, Seo JK, Sung HS. Hidradenoma Papilliferum Occurring on the Nasal Skin. *Ann Dermatol* 2011;23:S254-7.
16. Moon JW, Na CH, Kim HR, Shin BS. Giant ectopic hidradenoma papilliferum on the scalp. *J Dermatol* 2009;36:545-7.
17. Kim YJ, Lee JW, Choi SJ, Kim SJ, Kim YJ, Jeon YS, Lee KH. Ectopic Hidradenoma Papilliferum of the Breast: Ultrasound Finding. *J Breast Cancer* 2011;14:153-5.
18. Abudu EK, Umanah IN, Ekpo MD, Etuk EB, Onwuezobe IA, Obi-lhesie A. A giant ectopic hidradenoma papilliferum in a Niger delta region of Nigeria. *Rare Tumors* 2011; 3(4):e50.
19. Van R, Cohen PR. Ectopic hidradenoma papilliferum: A case report and review of the literature. *J Am Dermatol* 1999;41:115-8.
20. Tanaka M, Shimizu S. Hidradenoma papilliferum occurring on the chest of a man. *J Am Acad Dermatol* 2003;48:S20-1.