

## CASO CLÍNICO

# Espiroadenoma ecrino localizado en hombro: Reporte de un caso.

Diana Cristina Dávila Quijano,\* Juan Carlos Garcés Santos,\*\* Jorge Enrique Úraga Pazmiño\*\*\*

\* Dermatóloga, Centro Dermatológico "Dr. Úraga" Guayaquil - Ecuador  
 \*\* Patólogo - Dermatopatólogo, Guayaquil - Ecuador  
 \*\*\* Director del Centro Dermatológico "Dr. Úraga"

Correspondencia:  
 dianacdavilaq@hotmail.com

Palabras clave: Espiroadenoma ecrino, tumor de glándulas ecrinas, nódulo doloroso

Fecha de recepción: 20/12/2022  
 Fecha de aceptación: 13/01/2023

## RESUMEN

El espiroadenoma ecrino es una neoplasia benigna rara que se origina en las glándulas sudoríparas ecrinas. Suele presentarse con una lesión solitaria. Se caracteriza por ser un nódulo doloroso, frecuentemente de tonalidad azulada, con aumento de sensibilidad a la palpación que tiende a surgir en la parte superior del cuerpo, tal como cabeza, cuello y tronco. Para el diagnóstico se requiere un estudio histopatológico.

Se presenta el caso de un paciente del sexo masculino de 44 años con diagnóstico de espiroadenoma ecrino en hombro izquierdo y se hace una breve revisión del tema.

## INTRODUCCIÓN

El espiroadenoma ecrino es una neoplasia benigna, poco frecuente de los anexos de la piel, clasificado como un tumor de diferenciación ecrina.<sup>1,2</sup> Puede ocurrir en hombres y mujeres a cualquier edad, pero afecta con mayor incidencia a adultos jóvenes entre la segunda y cuarta década de la vida.<sup>2-4</sup>

Clínicamente se caracteriza como un nódulo solitario y doloroso en el 97% de los pacientes, pero la presentación múltiple comprende menos del 3% de todos los casos y parece ser predominante entre las mujeres. Se han informado espiroadenomas ecrinos múltiples de tipo lineales, zosteriformes, nevóides o que siguen las líneas de blaschko.<sup>5,6</sup>

## PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente masculino de 44 años de edad, que acudió a nuestra Institución por presentar un nódulo en el hombro izquierdo de 5 años de evolución. Inicialmente el nódulo no presentaba dolor o prurito asociado y fue creciendo gradualmente, presentando dolor en los úl-

timos 2 años. Sin antecedentes médicos patológicos personales o familiares de relevancia, negó cualquier miembro de la familia con hallazgos similares en la piel o antecedentes de cáncer de piel.

El examen físico reveló un nódulo subcutáneo, firme, de superficie lisa, bien delimitado, de color gris azulado localizado en el hombro izquierdo (Figura 1). Se realizó la escisión quirúrgica de la lesión subcutánea y el tejido se sometió a examen microscópico.

## DIAGNÓSTICO

Los hallazgos histológicos demostraron un nódulo de bordes definidos ubicado en la dermis media y profunda. El nódulo está compuesto por células basaloides dispuestas en pequeños nidos y cordones o acinos, en un escaso estroma fibroso hialino o edematoso. No se observó evidencia de transformación maligna (Figura 2).

## TRATAMIENTO

El paciente fue tratado mediante una escisión local completa sin recurrencia en los siguientes 2 años de control.

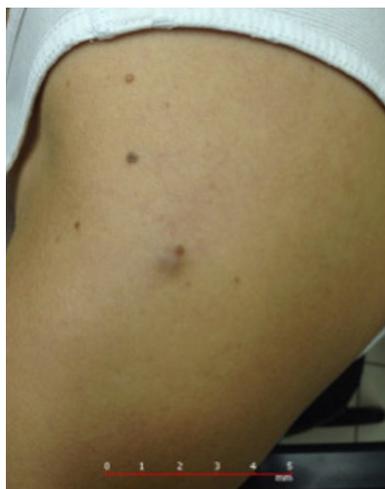


Figura 1. Nódulo subcutáneo, firme, de superficie lisa, bien delimitado, de color gris azulado localizado en el hombro izquierdo.

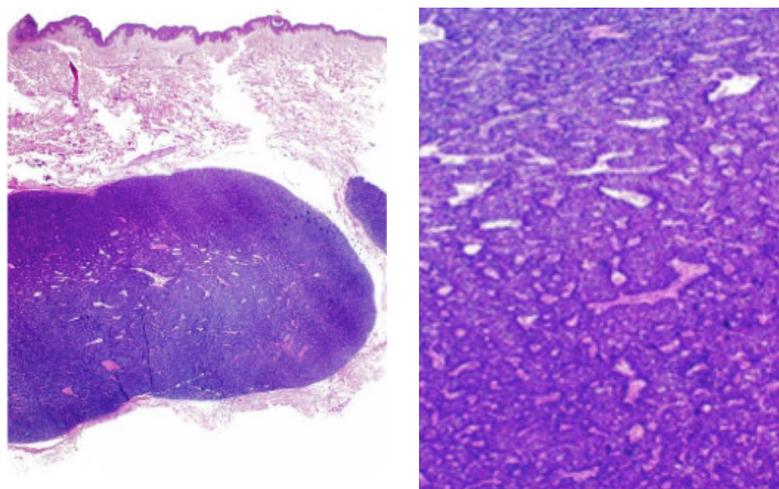


Figura 2. Los hallazgos histológicos demostraron un nódulo de bordes definidos ubicado en la dermis media y profunda. El nódulo está compuesto por células basaloideas dispuestas en pequeños nidos y cordones o acinos, en un escaso estroma fibroso hialino o edematoso. No se observó evidencia de transformación maligna.

## DISCUSIÓN

El espiroadenoma ecrino fue descrito por primera vez por Kersting y Helwig en 1956.<sup>4,2</sup>

Se trata de un tumor anexial raro y benigno que se origina en las glándulas sudoríparas ecrinas cutáneas.<sup>7</sup> La etiología de la espiroadenoma ecrino sigue siendo desconocida. Aunque se ha sugerido la transmisión autosómica dominante, esto no ha sido confirmado.<sup>5,8</sup>

Las glándulas sudoríparas ecrinas son glándulas tubulares simples que se abren directamente a la superficie; se encuentran en todo el cuerpo, especialmente en las palmas, plantas y las axilas.<sup>8</sup> El espiroadenoma ecrino tiende a surgir en la parte superior del cuerpo; cabeza, cuello y tronco, especialmente la porción ventral. En raras ocasiones, puede localizarse en las extremidades superiores e inferiores, especialmente en la porción dorsal.<sup>3</sup>

Ocurre a menudo como un nódulo solitario, lobulado de textura firme o blanda y esponjosa, redonda u ovoide y de color azul, que varía en tamaño de 0,5 a 5 cm de diámetro.<sup>16</sup> Se encuentra entre los tumores cutáneos más dolorosos. El dolor es la característica clínica más distintiva, se describe como discontinuo e intermitente, está presente en el 91% de los pacientes y ayuda a establecer el diagnóstico, pero su ausencia no lo descarta.<sup>7,9</sup>

Parque Hye Ran y col. plantearon la hipótesis de que el dolor en el espiroadenoma ecrino se debe a que las

fibras nerviosas en la cápsula tumoral y en el tejido conectivo del estroma estarían engrosadas, hiperexcitables y estimuladas por la presión o estímulos sensoriales cutáneos leves.<sup>10,11</sup>

Se ha reportado pocos casos de espiroadenomas múltiples en la literatura hasta la fecha, se estima que comprende menos del 2% de todos los casos.<sup>5</sup> Se ha propuesto que pueden surgir de un clon anormal de células madre multipotentes de la unidad folículo sebácea durante la embriogénesis, produciendo una proliferación de células anormales que da como resultado la formación de nódulos.<sup>6</sup> Pueden describirse como multifocales o localizados, distribuidos en un patrón lineal, zosteriforme, nevoide o blaschkoides en función de su distribución.<sup>5</sup>

Aunque rara, la transformación maligna se ha visto reportada en pocos casos, fue descrita por primera vez en 1972. Puede surgir generalmente en 20 a 30 años después de la lesión inicial. 6 Se propaga a través de las vías linfática y hematológica.<sup>12</sup>

Los signos de malignidad incluyen un aumento en el tamaño y número de lesiones, cambio de color y la aparición de signos como ulceración y sangrado.<sup>4</sup>

El diagnóstico definitivo se basa en la histología y la inmunohistoquímica; comprende nódulos basófilos grandes, muy bien delimitados (“balas de cañón” o “bolas azules”) dispuestos en cordones entrelazados, islas o láminas en la dermis o el tejido subcutáneo que

están rodeados por una cápsula fibrosa. Las células basaloideas pueden estar compuestas de dos morfologías distintas con un tipo de célula que es más grande, pálida y con núcleos ovoides y el otro tipo que es más pequeño, oscuro y con núcleos hiper cromáticos compactos.<sup>6</sup> En ciertos casos se observa infiltración de linfocitos y abundantes telangiectasias en la región tumoral. Cuando la hiperplasia vascular es importante se debe realizar un diagnóstico diferencial para los tumores glómicos.<sup>1</sup>

Además, debe diferenciarse de otros nódulos clínicamente dolorosos, como schwannomas, hemangiomas, angioleiomiomas, tumores glómicos y endometriosis cutánea.<sup>3</sup>

El tratamiento estándar consiste en la escisión quirúrgica con márgenes amplios de 1 a 3 cm. Para casos de multiplicidad o malignidad se consideran opciones como la radioterapia, la ablación con láser de dióxido de carbono o la quimioterapia. Sin embargo, ésta última como tratamiento adyuvante no está bien establecida.<sup>6,12</sup>

El seguimiento de los pacientes con transformación maligna debe ser muy regular debido a su mal pronóstico; presenta una tasa de mortalidad de hasta el 39% de los casos en ausencia de tratamiento.<sup>7</sup>

## CONCLUSIÓN

El espiroadenoma ecrino es una patología no tan frecuente de observar. La localización en hombro le otorga mayor importancia al diagnóstico diferencial con otras lesiones tumorales en esta ubicación.

## BIBLIOGRAFÍA

- Zheng, Y., Tian, Q., Wang, J., Dong, X., Jing, H., Wang, X., Feng, Y., & Xiao, S. (2014). Differential diagnosis of eccrine spiradenoma: A case report. *Experimental and Therapeutic Medicine*, 8(4), 1097–1101.
- Ter Poorten, M. C., Barrett, K., & Cook, J. (2003). Familial eccrine spiradenoma: a case report and review of the literature. *Dermatologic Surgery: Official Publication for American Society for Dermatologic Surgery [et Al.]*, 29(4), 411–414.
- Son, J. H., Choi, Y. W., Cho, Y. S., Byun, Y. S., Chung, B. Y., Cho, H. J., Kim, H. O., & Park, C. W. (2017). A Case of Eccrine Spiradenoma: A Rarely Seen Soft Tissue Tumor on the Extensor Surface of Arm. *Annals of Dermatology*, 29(4), 519–522.
- Cukic, O., Jovanovic, M. B., & Milutinovic, Z. (2019). An Unusual Nodule on the Auricle: Eccrine Spiradenoma. *Ear, Nose, & Throat Journal*, 98(9), 545–546.
- Zheng, Y., Tian, Q., Wang, J., Dong, X., Jing, H., Wang, X., Feng, Y., & Xiao, S. (2014). Differential diagnosis of eccrine spiradenoma: A case report. *Experimental and Therapeutic Medicine*, 8(4), 1097–1101.
- Englander, L., Emer, J. J., McClain, D., Amin, B., & Turner, R. B. (2011). A rare case of multiple segmental eccrine spiradenomas. *The Journal of Clinical and Aesthetic Dermatology*, 4(4), 38–44.
- Salim, S., Bounniyt, H., El Amraoui, M., Benzekri, A., Senouci, K., & Hassam, B. (2018). Malignant transformation of a spiradenoma with blaschkoïd pattern. *Clinical Case Reports*, 6(11), 2086–2088.
- Ren, F., Hu, Z., Kong, Q., & Sang, H. (2015). Multiple Segmental Eccrine Spiradenoma with a Zosteriform Pattern: A Case Report and Literature Review. *Annals of Dermatology*, 27(4), 435–438.
- Revis, P., Chyu, J., & Medenica, M. (1988). Multiple eccrine spiradenoma: case report and review. In *Journal of Cutaneous Pathology*. (Vol. 15, Issue 4, pp. 226–229).
- Donaldson, K., Scott, G., Cantor, F. K., Patronas, N. J., Quezado, M., & Heiss, J. D. (2018). Eccrine spiradenoma mimicking a painful traumatic neuroma: case report. *Journal of Neurosurgery*, 129(3), 825–828.
- Park, H. R., Im, S. B., Kim, H. K., Shin, D. S., & Park, Y. L. (2012). Painful eccrine spiradenoma containing nerve fibers: a case report. *Dermatology*, 224(4), 301–306.
- Otero JE, Carlo V, Trinidad J. Malignant eccrine spiradenoma of the neck: A case report, *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001. 125(4), 0–428
- Xing, Y., Wu, X., Xu, C., Sun, L., Li, H., Zhang, Y., Xue, H., & Ye, Y. (2021). Ultrasonographic features of eccrine spiradenoma: A case report. *Medicine*, 100(14), e25469.

## CASE REPORT

# Eccrine spiroadenoma located on the shoulder: Report of a case.

Diana Cristina Dávila Quijano,\* Juan Carlos Garcés Santos,\*\* Jorge Enrique Úraga Pazmiño\*\*\*

\* Dermatologist, of the Dermatological Center “Dr. Úraga” Guayaquil, Ecuador

\*\* Pathologist - Dermatopathologist, Guayaquil, Ecuador

\*\*\* Director of the Dermatological Center “Dr. Úraga”.

Corresponding author: dianacadavilaq@hotmail.com

Key words: eccrine spiroadenoma, eccrine gland tumor, painful nodule

Reception date: 20/12/2022

Acceptance date: 13/01/2023

## ABSTRACT

Eccrine spiroadenoma is a rare benign neoplasm originating in the eccrine sweat glands. It usually presents as a solitary lesion. It is characterized by a painful nodule, often bluish in hue, with increased tenderness to palpation that tends to arise on the upper body, such as the head, neck and trunk. A histopathological study is required for diagnosis.

The case of a 44-year-old male patient with a diagnosis of eccrine spiroadenoma in the left shoulder is presented and a brief review of the subject is made.

## INTRODUCTION

Eccrine spiroadenoma is a rare benign neoplasm of the skin adnexa, classified as a tumor of eccrine differentiation.<sup>1,2</sup> It can occur in men and women at any age, but most commonly affects young adults between the second and fourth decades of life.<sup>2-4</sup>

Clinically it is characterized as a solitary, painful nodule in 97% of patients, but multiple presentation comprises less than 3% of all cases and appears to be predominant among women. Multiple eccrine spiroadenomas of linear, zosteriform, nevoid or following blaschko lines have been reported.<sup>5-6</sup>

## CASE PRESENTATION

44-year-old male patient, who came to our institution for presenting a nodule on the left shoulder of 5 years of evolution. Initially the nodule did not present pain or associated pruritus and was gradually growing, presenting pain in the last 2 years. With no relevant personal or

family medical pathological history, she denied any family member with similar skin findings or history of skin cancer. Physical examination revealed a subcutaneous, firm, smooth-surfaced, well-demarcated, bluish-gray nodule located on the left shoulder (Figure 1). Surgical excision of the subcutaneous lesion was performed and the tissue was submitted for microscopic examination.

## DIAGNOSIS

Histologic findings demonstrated a nodule with defined borders located in the mid and deep dermis. The nodule is composed of basaloid cells arranged in small nests and cords or acini, in a sparse hyaline or edematous fibrous stroma. No evidence of malignant transformation was observed (Figure 2).

## TREATMENT

The patient was treated by complete local excision with no recurrence in the following 2 years of follow-up.

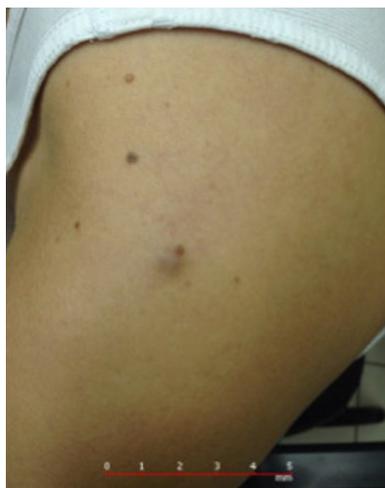


Figure 1. Firm, smooth-surfaced, well-demarcated, bluish-gray, subcutaneous nodule located on the left shoulder.

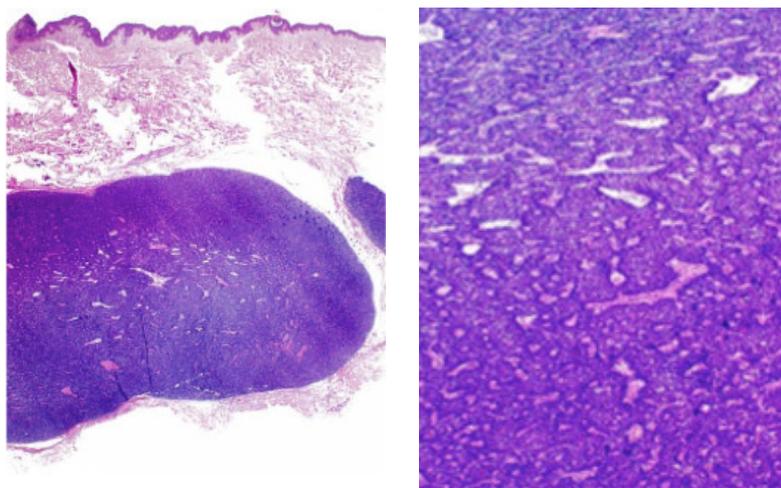


Figure 2. Histologic findings demonstrated a nodule with distinct borders located in the mid and deep dermis. The nodule is composed of basaloid cells arranged in small nests and cords or acini, in a sparse hyaline or edematous fibrous stroma. No evidence of malignant transformation was observed.

## DISCUSSION

Ecrrine spiroadenoma was first described by Kersting and Helwig in 1956.<sup>4,2</sup> It is a rare and benign adnexal tumor originating in the cutaneous eccrine sweat glands.<sup>7</sup> The etiology of ecrrine spiroadenoma remains unknown. Although autosomal dominant transmission has been suggested, this has not been confirmed.<sup>5,8</sup>

Ecrrine sweat glands are simple tubular glands that open directly to the surface; they are found throughout the body, especially on the palms, soles and axillae.<sup>8</sup> Ecrrine spiroadenoma tends to arise in the upper body; head, neck and trunk, especially the ventral portion. Rarely, it may be located on the upper and lower extremities, especially the dorsal portion.<sup>3</sup>

It often occurs as a solitary, lobulated nodule of firm or soft and spongy texture, round or ovoid and blue in color, varying in size from 0.5 to 5 cm in diameter.<sup>1,6</sup>

It is among the most painful cutaneous tumors. Pain is the most distinctive clinical feature, it is described as discontinuous and intermittent, it is present in 91% of patients and helps to establish the diagnosis, but its absence does not rule it out.<sup>7,9</sup>

Hye Ran Park et al. hypothesized that pain in ecrrine spiroadenoma is due to nerve fibers in the tumor capsule and stromal connective tissue that are thickened, hype-

rexcitabile, and stimulated by pressure or mild cutaneous sensory stimuli.<sup>10,11</sup>

Few cases of multiple spiroadenomas have been reported in the literature to date, estimated to comprise less than 2% of all cases.<sup>5</sup> It has been proposed that they may arise from an abnormal clone of multipotent stem cells of the sebaceous follicle unit during embryogenesis, producing a proliferation of abnormal cells resulting in the formation of nodules.<sup>6</sup> They may be described as multifocal or localized, distributed in a linear, zosteriform, nevoid or blaschkoid pattern depending on their distribution.<sup>5</sup>

Although rare, malignant transformation has been reported in a few cases, it was first described in 1972. It can usually arise within 20 to 30 years after the initial lesion.<sup>6</sup> It spreads through the lymphatic and hematogenous pathways.<sup>12</sup>

Signs of malignancy include an increase in the size and number of lesions, color change and the appearance of signs such as ulceration and bleeding.<sup>4</sup>

Definitive diagnosis is based on histology and immunohistochemistry; it comprises large, sharply demarcated basophilic nodules (“cannonballs” or “blue balls”) arranged in interlacing cords, islands or sheets in the dermis or subcutaneous tissue that are surrounded by a fibrous capsule. Basaloid cells may be composed of two distinct morphologies with one type of cell being

larger, pale and with ovoid nuclei and the other type being smaller, darker and with compact hyperchromatic nuclei.<sup>6</sup> In certain cases lymphocyte infiltration and abundant telangiectasias are observed in the tumor region. When vascular hyperplasia is important a differential diagnosis should be made for glomus tumors.<sup>1</sup>

In addition, it must be differentiated from other clinically painful nodules, such as schwannomas, hemangiomas, angioleiomyomas, glomus tumors and cutaneous endometriosis.<sup>13</sup>

Standard treatment consists of surgical excision with wide margins of 1 to 3 cm. For cases of multiplicity or malignancy, options such as radiotherapy, carbon dioxide laser ablation or chemotherapy are considered. However, the latter as an adjuvant treatment is not well established.<sup>6,12</sup>

Follow-up of patients with malignant transformation must be very regular due to its poor prognosis; it has a mortality rate of up to 39% of cases in the absence of treatment.<sup>7</sup>

## CONCLUSION

Eccrine spiradenoma is a pathology not so frequent to observe. The location in the shoulder gives greater importance to the differential diagnosis with other tumor lesions in this location.

## REFERENCES

- Zheng, Y., Tian, Q., Wang, J., Dong, X., Jing, H., Wang, X., Feng, Y., & Xiao, S. (2014). Differential diagnosis of eccrine spiradenoma: A case report. *Experimental and Therapeutic Medicine*, 8(4), 1097–1101.
- Ter Poorten, M. C., Barrett, K., & Cook, J. (2003). Familial eccrine spiradenoma: a case report and review of the literature. *Dermatologic Surgery: Official Publication for American Society for Dermatologic Surgery [et Al.]*, 29(4), 411–414.
- Son, J. H., Choi, Y. W., Cho, Y. S., Byun, Y. S., Chung, B. Y., Cho, H. J., Kim, H. O., & Park, C. W. (2017). A Case of Eccrine Spiradenoma: A Rarely Seen Soft Tissue Tumor on the Extensor Surface of Arm. *Annals of Dermatology*, 29(4), 519–522.
- Cukic, O., Jovanovic, M. B., & Milutinovic, Z. (2019). An Unusual Nodule on the Auricle: Eccrine Spiradenoma. *Ear, Nose, & Throat Journal*, 98(9), 545–546.
- Zheng, Y., Tian, Q., Wang, J., Dong, X., Jing, H., Wang, X., Feng, Y., & Xiao, S. (2014). Differential diagnosis of eccrine spiradenoma: A case report. *Experimental and Therapeutic Medicine*, 8(4), 1097–1101.
- Englander, L., Emer, J. J., McClain, D., Amin, B., & Turner, R. B. (2011). A rare case of multiple segmental eccrine spiradenomas. *The Journal of Clinical and Aesthetic Dermatology*, 4(4), 38–44.
- Salim, S., Bounniyt, H., El Amraoui, M., Benzekri, A., Senouci, K., & Hassam, B. (2018). Malignant transformation of a spiradenoma with blaschkoid pattern. *Clinical Case Reports*, 6(11), 2086–2088.
- Ren, F., Hu, Z., Kong, Q., & Sang, H. (2015). Multiple Segmental Eccrine Spiradenoma with a Zosteriform Pattern: A Case Report and Literature Review. *Annals of Dermatology*, 27(4), 435–438.
- Revis, P., Chyu, J., & Medenica, M. (1988). Multiple eccrine spiradenoma: case report and review. In *Journal of Cutaneous Pathology*. (Vol. 15, Issue 4, pp. 226–229).
- Donaldson, K., Scott, G., Cantor, F. K., Patronas, N. J., Quezado, M., & Heiss, J. D. (2018). Eccrine spiradenoma mimicking a painful traumatic neuroma: case report. *Journal of Neurosurgery*, 129(3), 825–828.
- Park, H. R., Im, S. B., Kim, H. K., Shin, D. S., & Park, Y. L. (2012). Painful eccrine spiradenoma containing nerve fibers: a case report. *Dermatology*, 224(4), 301–306.
- Otero JE, Carlo V, Trinidad J. Malignant eccrine spiradenoma of the neck: A case report, *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2001. 125(4), 0–428
- Xing, Y., Wu, X., Xu, C., Sun, L., Li, H., Zhang, Y., Xue, H., & Ye, Y. (2021). Ultrasonographic features of eccrine spiradenoma: A case report. *Medicine*, 100(14), e25469.