

利益冲突 所有作者声明无利益冲突

参 考 文 献

- [1] YU X J, LIANG M F, ZHANG S Y, et al. Fever with thrombocytopenia associated with a novel bunyavirus in China[J]. *N Engl J Med*, 2011, 364(16): 1523-1532.
- [2] LIU S L, CHAI C L, WANG C M, et al. Systematic review of severe fever with thrombocytopenia syndrome: Virology, epidemiology, and clinical characteristics[J]. *Rev Med Virol*, 2014, 24(2): 90-102.
- [3] ZHAN J B, WANG Q, CHENG J, et al. Current status of severe fever with thrombocytopenia syndrome in China[J]. *Virol Sin*, 2017, 32(1): 51-62.
- [4] FANG X Y, HU J L, PENG Z H, et al. Epidemiological and clinical characteristics of severe fever with thrombocytopenia syndrome bunyavirus human-to-human transmission[J]. *PLoS Negl Trop Dis*, 2021, 15(4): e0009037.
- [5] LIU T, ZHANG N N, LI H W, et al. Analysis of severe fever with thrombocytopenia syndrome cluster in east China[J]. *Virol J*, 2023, 20(1): 199.
- [6] 周诗君,夏国美,贺腾飞,等.新型布尼亚病毒感染患者临床特征及其预后因素分析[J]. *安徽医科大学学报*, 2021, 56(6): 942-947.
- [7] CRUMP A, TANIMOTO T. Severe fever with thrombocytopenia syndrome: Japan under threat from life-threatening emerging tick-borne disease[J]. *JMA J*, 2020, 3(4): 295-302.
- [8] KANG J G, CHO Y K, JO Y S, et al. Severe fever with thrombocytopenia syndrome virus in ticks in the republic of Korea[J]. *Korean J Parasitol*, 2022, 60(1): 65-71.
- [9] 中华人民共和国卫生部. 发热伴血小板减少综合征防治指南(2010 版)[J]. *中华临床感染病杂志*, 2011, 4(4): 193-194.
- [10] 盛棋跃,盛吉芳,张旋,等.新型布尼亚病毒感染患者 25 例临床特征及预后因素分析[J]. *中华危重症医学杂志(电子版)*, 2019, 12(3): 152-157.
- [11] 刘久江,石颖,郑瑞强.脑脊液 mNGS 协助诊断新型布尼亚病毒脑炎 1 例[J]. *中国感染控制杂志*, 2023, 22(9): 1107-1109.
- [12] MENG X, LIU Y, LI J, et al. Metagenomic next-generation sequencing for diagnosis and efficacy evaluation of a critical case of SFTS complicated by invasive pulmonary aspergillosis[J]. *IDCases*, 2023, 33: e01884.
- [13] 朱立雨,张春,张炜,等.重症新型布尼亚病毒感染的临床特征及死亡危险因素探讨[J]. *中国临床医生杂志*, 2022, 50(10): 1172-1175.
- [14] ZHANG Z W, HU X, JIANG Q Q, et al. Clinical characteristics and outcomes of acute kidney injury in patients with severe fever with thrombocytopenia syndrome[J]. *Front Microbiol*, 2023, 14: 1236091.
- [15] SHUTO H, KOMIYA K, USAGAWA Y, et al. Corticosteroid therapy for patients with severe fever with thrombocytopenia syndrome: A nationwide propensity score - matched study in Japan[J]. *Open Forum Infect Dis*, 2023, 10(8): ofad418.
- [16] ZHANG S S, DU J, CUI N, et al. Clinical efficacy of immunoglobulin on the treatment of severe fever with thrombocytopenia syndrome: A retrospective cohort study[J]. *EBioMedicine*, 2023, 96: 104807.
- [17] 朱伯成,葛国军,任文铨,等.静注人免疫球蛋白在肾移植术后肺部感染中的疗效分析[J]. *临床肾脏病杂志*, 2017, 17(7): 415-418.
- [18] LI J, LI S, YANG L, et al. Severe fever with thrombocytopenia syndrome virus: A highly lethal bunyavirus[J]. *Crit Rev Microbiol*, 2021, 47(1): 112-125.

收稿日期:2024-02-26

(本文编辑:孙海儿)

肛周化脓性汗腺炎继发疣状癌 1 例报告

沈展,阮航,沈锦敏,朱梦婷,朱潇逸

doi:10.3969/j.issn.1671-0800.2024.07.036

【中图分类号】 R657.1⁺5 【文献标志码】 B 【文章编号】 1671-0800(2024)07-0964-03

化脓性汗腺炎(hidradenitis suppurativa, HS)是一种慢性炎症性皮肤病,其主要特征是反复复发的伴有疼痛的皮肤结节和脓肿破溃,以及皮肤窦道和瘢痕的形成^[1]。其主要发生在身体富含顶泌腺的区域,如腋窝、乳房下和乳房间区域、腹股沟、肛周和臀部区域等^[2],通常发生在青春期后,主要发生于 20 ~ 30 岁女性^[3]。目前肛周 HS 继发疣状癌(verrucous carcinoma, VC)的临床案例报道少见,本文拟介绍 1 例

患者资料,旨在提高对此类疾病的认识,现报道如下。

1 病例

患者男,62 岁,自诉从青春期起背部、腋窝及肛周等多处皮肤出现感染化脓,曾多次行皮肤脓肿切开引流术。7 年前开始肛周皮肤出现反复破溃、流脓伴瘙痒等不适,2016 年患者曾于外院就诊,诊断为肛周 HS,行肛周病灶切除+植皮手术治疗,术后患者再次出现肛周皮肤感染伴流脓,予以药物抗感染对症处理后缓解。自发病来患者肛周皮肤感染反复发作,均予以对症处理,一直未行规范诊治。

作者单位: 310000 杭州,树兰(杭州)医院

通信作者: 朱潇逸, Email: xiaoyi.zhu@shulan.com

2023 年 4 月患者因“肛周皮肤感染症状加重伴发热 3 d”来树兰(杭州)医院就诊。体质指数(BMI)为 25.1 kg/m^2 ; 饮用白酒约 30 余年, 150 ml/d, 目前未戒酒; 吸烟约 30 余年, 20 根/d, 已戒烟 2 年; 患者既往有左侧肺癌根治手术史, 有胃部分切除手术史, 有心动过缓、心脏起搏器植入病史; 否认有家族遗传病史。

入院查体: 神清, 痛苦貌, 背部皮肤可见多处瘢痕、黑头和痤疮; 两侧臀部皮肤色素沉着, 原手术瘢痕增生, 肛周皮肤为疣状结节覆盖, 多处脓肿破溃流脓, 有恶臭; 肛门呈畸形, 肛管皮肤为疣状增生结节覆盖, 质硬; 肛门指检: 肛管狭窄, 食指可勉强通过, 距肛门 7 cm 内未及明显的肿块, 指套退出无染血; 两侧腹股沟未触及明显的肿大淋巴结, 见图 1A。实验室检查: 血常规+超敏 C 反应蛋白(2023 年 4 月 26 日): 白细胞计数 $11.9 \times 10^9/\text{L}$, 中性粒细胞 89.4%, 超敏 C 反应蛋白 133.5 mg/L 。全腹平扫 CT+增强(2023 年 5 月 9 日): 肛门后部-会阴及两侧臀部皮肤不规则增厚、强化, 局部坏死, 脓腔形成? 请结合临床; 两侧腹股沟区多发稍大淋巴结; 胃体部小弯侧胃壁金属线, 胃术后改变考虑; 脾脏脉管瘤考虑; 两肾多发小囊肿。初步诊断: (1) 肛周 HS; (2) 胃部分切除术

后; (3) 肺癌术后; (4) 心脏起搏器置入状态。

排除禁忌证后, 2023 年 5 月 12 日在硬膜外麻醉下行肛周 HS 去顶术+窦道清除术+皮肤病损切除术, 见图 1B。术后病理: (臀部) VC, 大小 $5 \text{ cm} \times 4 \text{ cm} \times 2 \text{ cm}$, 脉管累犯(-), 神经累犯(-), 见图 2。结合病理检查结果确诊为肛周 HS 继发肛管 VC, 2023 年 6 月 2 日在全身麻醉下行腹腔镜辅助腹会阴直肠切除术(mile's 式)+肛周皮肤病损根治性切除术+带蒂皮瓣移植术+旋转皮瓣移植术, 见图 1C、D。术后予静脉抗炎、换药、营养补液等对症支持治疗。术后病理: (1) (肛周) VC, 手术切缘阴性; (2) (直肠) 黏膜慢性炎。现患者术后近 10 个月余, 术区愈合良好, 肿瘤无复发转移。

本研究获得树兰(杭州)医院科研伦理委员会批准(KY2023086), 研究对象同意参加本研究并签署书面知情同意书。

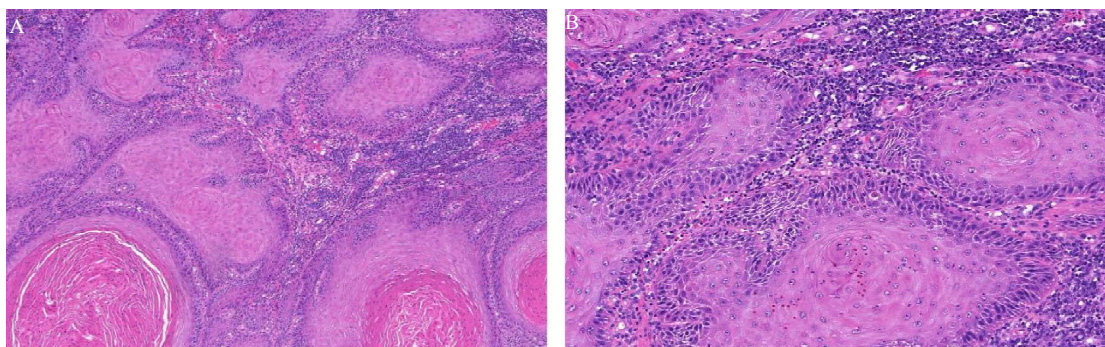
2 讨论

HS 病变的形成始于滤泡阻塞, 滤泡扩张后破裂, 导致滤泡内容物, 包括角蛋白和细菌挤压到周围的真皮, 并诱导中性粒细胞和淋巴细胞的强烈炎症反应。滤泡周围炎症细胞浸润导致脓肿形成, 导致



注: A 为第一次手术前外观, 示瘢痕增生, 肛周皮肤为疣状结节覆盖, 多处脓肿破溃流脓; B 为行肛周 HS 去顶术+窦道清除术+皮肤病损切除术后外观; C、D 为腹腔镜辅助腹会阴直肠切除术(mile's 式)+肛周皮肤病损根治性切除术+带蒂皮瓣移植术+旋转皮瓣移植术后外观

图 1 患者手术相关图像



注: A 示角蛋白珍珠明显可见, 分化良好的鳞状上皮以杵状或棒球棒状浸润(HE 染色, $\times 40$); B 示细胞外基质充满大量浆细胞, 细胞异型性不明显, 有丝分裂象也很少见(HE 染色, $\times 100$)

图 2 患者第一次手术后病理图

毛囊皮脂腺单位的破坏^[3]。免疫细胞和角质形成细胞介导的产物被认为是 HS 发病的关键角色^[4]。根据 Hurley 分级,临床将 HS 的严重程度分为 3 级, I 级定义为单个或多个结节、脓肿,无窦道或瘢痕形成; II 级为单个或多个广泛散在的复发性结节、脓肿,伴窦道或瘢痕形成; III 级为整个受累区域弥漫分布多发、相互穿通的窦道和脓肿。目前 HS 病因尚不明确,研究表明其与多种因素和疾病有关,如遗传、肥胖、超重、吸烟、细菌感染、代谢综合征及机械性刺激等^[3]。其中遗传和环境因素起着关键作用^[5]。HS 是一种身心疾病,由于其慢性、反复的特点,患者的社会、工作和心理都会受严重影响,部分患者可能会出现抑郁和焦虑^[6]。HS 的诊断平均都在发病 7 年之后^[7],由于慢性感染的长期刺激,部分 HS 也可继发恶性肿瘤,尤其在肛门生殖区域最为常见^[8-9]。

肛门-生殖器区 VC 是一种罕见的、特殊类型的鳞状细胞癌(squamous cell carcinoma, SCC),恶性程度较低,极少发生淋巴结转移,但可能浸润较深^[10]。VC 与尖锐湿疣是两种不同的疾病,但常会被混淆而谈^[11]。目前它的治疗方法主要是彻底的外科切除,但没有标准化的手术方式。其手术方式的选择取决于多种因素,包括患者本身因素及肿瘤的位置、大小。行局部切除后的复发案例并不罕见,如果切除不彻底,则复发率较高(30%~50%)^[12],但如果行根治性切除(外阴切除术、阴茎切除术或直肠切除术),则可能严重影响患者的生活质量^[13-14]。

由于 VC 可转化为普通型鳞癌,建议术后每 3~6 个月进行长期随访。对于巨大的肛门生殖区 VC,由于难以行肛门部肿瘤的完全切除,国外有行腹会阴直肠切除术的报道^[10]。本研究患者 HS 自青春期发病,其肛周病变最为严重,曾于 7 年余前行肛周皮肤病损切除+植皮手术,后又再次复发。其肛周 HS 的严重程度根据 Hurley 分类已达 III 期,即伴有隧道形成、瘢痕和炎症的合并病变,同时由于长期慢性炎症刺激继发了肛周 VC,而且已浸润至整个肛管,病变范围巨大,无法行局部切除。且病史较长,对患者身心和正常生活已造成巨大影响,患者行根治手术意愿较强,与患者充分沟通后决定行根治性手术,即腹会阴直肠切除术+肛周皮肤病损切除+皮瓣移植术。患者门诊规范复诊、随访,现术后半年,患者术

区愈合良好,无复发,生活质量较前明显改善。

综上所述,对于肛周 HS 早期诊断非常重要,建议早期手术,尤其是肛周生殖区域,避免继发癌变。

利益冲突 所有作者声明无利益冲突

参 考 文 献

- [1] KURZEN H, KUROKAWA I, JEMEC G B, et al. What causes hidradenitis suppurativa[J]. *Exp Dermatol*, 2008, 17(5): 455-456.
- [2] REVUZ J E, JEMEC G B. Diagnosing hidradenitis suppurativa[J]. *Dermatol Clin*, 2016, 34(1): 1-5.
- [3] NAPOLITANO M, MEGNA M, TIMOSHCHUK E A, et al. Hidradenitis suppurativa: From pathogenesis to diagnosis and treatment[J]. *Clin Cosmet Investig Dermatol*, 2017, 10: 105-115.
- [4] DEL DUCA E, MORELLI P, BENNARDI L, et al. Cytokine pathways and investigational target therapies in hidradenitis suppurativa[J]. *Int J Mol Sci*, 2020, 21(22): 8436.
- [5] SCALA E, CACCIAPUOTI S, GARZORZ-STARK N, et al. Hidradenitis suppurativa: Where we are and where we are going[J]. *Cells*, 2021, 10(8): 2094.
- [6] INGRAM J R, JENKINS-JONES S, KNIPE D W, et al. Population-based Clinical Practice Research Datalink study using algorithm modelling to identify the true burden of hidradenitis suppurativa[J]. *Br J Dermatol*, 2018, 178(4): 917-924.
- [7] MARGESSON L J, DANBY F W. Hidradenitis suppurativa [J]. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol*, 2014, 28(7): 1013-1027.
- [8] SAMYCIA M, BRASSARD A. Adalimumab in treatment-resistant hidradenitis suppurativa following recurrence after extensive affected area excision: A review of biologics therapy[J]. *J Cutan Med Surg*, 2013, 17(Suppl 1): S23-S32.
- [9] COSMAN B C, O'GRADY T C, PEKARSKE S. Verrucous carcinoma arising in hidradenitis suppurativa[J]. *Int J Colorectal Dis*, 2000, 15(5): 342-346.
- [10] LU S, BODEMER W, OSTWALD C, et al. Anal verrucous carcinoma and penile condylomata acuminata[J]. *Dermatology*, 2000, 200(4): 320-323.
- [11] ZIDAR N, LANGNER C, ODAR K, et al. Anal verrucous carcinoma is not related to infection with human papillomaviruses and should be distinguished from giant condyloma (Buschke-Luowenstein tumour)[J]. *Histopathology*, 2017, 70(6): 938-945.
- [12] MEHTA R K, RYTINA E, STERLING J C. Treatment of verrucous carcinoma of vulva with acitretin[J]. *Br J Dermatol*, 2000, 142(6): 1195-1198.
- [13] BROWN M D, ZACHARY C B, GREKIN R C, et al. Genital tumors: Their management by micrographic surgery[J]. *J Am Acad Dermatol*, 1988, 18(1 Pt 1): 115-122.
- [14] GOLDA N J, WHEELAND R G. Vulvar squamous cell carcinoma treated using the Mohs technique: Case and assessment of treatment strategies[J]. *Dermatol Surg*, 2009, 35(8): 1294-1297.

收稿日期:2024-02-23

(本文编辑:钟美春)