

# Angio-eccrine hamartoma: About two cases in Dakar, Senegal

Mamadou Diouldé 1 Kanté<sup>1,2</sup>, Khadim Diop<sup>3</sup>, Ndeye Beye Ngom<sup>1</sup>, Solohery Andriateloasy<sup>3</sup>, Aminata Deh<sup>1</sup>, Moado Ndiaye<sup>3</sup>, Thierno Mamadou Tounkara<sup>2</sup>, Fatimata Ly<sup>3</sup>, Moussa Diallo<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Dermatology Institute of Social Hygiene, Dakar, Senegal, <sup>2</sup>Faculty of Health Sciences and Technologies, CHU Donka, Guinea, <sup>3</sup>Dermatology Department, Aristide LeDantec Hospital, Dakar, Senegal

**Corresponding author:** Mamadou Diouldé 1 Kanté, MD, E-mail: diouldekante18@gmail.com

## ABSTRACT

Angio eccrine hamartoma (EAH) is a rare, benign tumoral lesion composed of eccrine glands and vascular structures in the mid dermis. We report on two observations in Dakar. **Observation 1:** A four-month-old infant was seen for an erythematous plaque, rounded, with a smooth surface, asymptomatic, localized to the right thigh, evolving for three months. The clinical appearance suggested a spitz tumour. Cutaneous histology confirmed the diagnosis of angioeccrine hamartoma. **Observation 2:** The second case was concerned with a ten-month-old infant received for an erythematous, atrophic plaque, localized at the level of the inter-gluteal fold, evolving since birth. This clinical aspect was suggestive of a sclero-atrophic lichen. Cutaneous histology confirmed the diagnosis of angioeccrine hamartoma. **Discussion:** We reported two observations of HAE original by the rarity and the clinical presentations leading to confusion with a nevus of Spitz and the sclero-atrophic lichen. Cutaneous histology was of considerable contribution.

**Key words:** Hamartoma; Angio-eccrine hamartoma; Eccrine gland

**How to cite this article:** Kanté MD1, Diop K, Ngom NB, Andriateloasy S, Deh A, Ndiaye M, Tounkara TM, Ly F, Diallo M. Angio-eccrine hamartoma: About two cases in Dakar, Senegal. Our Dermatol Online. 2022;13(Supp. 2):45-48.

**Submission:** 23.05.2022; **Acceptance:** 28.06.2022

**DOI:** 10.7241/ourd.2022S2.5

# Hamartome angio-eccrine: A propos de deux observations à Dakar, Sénégal

Mamadou Diouldé 1 Kanté<sup>1,2</sup>, Khadim Diop<sup>3</sup>, Ndeye Beye Ngom<sup>1</sup>, Solohery Andriateloasy<sup>3</sup>, Aminata Deh<sup>1</sup>, Moado Ndiaye<sup>3</sup>, Thierno Mamadou Tounkara<sup>2</sup>, Fatimata Ly<sup>3</sup>, Moussa Diallo<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Dermatology Institute of Social Hygiene, Dakar, Senegal, <sup>2</sup>Faculty of Health Sciences and Technologies, CHU Donka, Guinea, <sup>3</sup>Dermatology Department, Aristide LeDantec Hospital, Dakar, Senegal

**Corresponding author:** Mamadou Diouldé 1 Kanté, MD, E-mail: diouldekante18@gmail.com

## RESUME

L'hamartome angio-eccrine (HAE) est une lésion tumorale bénigne, rare, composée de glandes eccrines et de structures vasculaires du derme moyen. Nous en rapportons deux observations à Dakar. **Observation 1:** Un nourrisson âgé de quatre mois était reçu pour une plaque érythémateuse, arrondie, à surface lisse, asymptomatique, localisée à la cuisse droite, évoluant depuis trois mois. L'aspect clinique faisait évoquer une tumeur de Spitz. L'histologie cutanée a permis de retenir le diagnostic d'hamartome angio-eccrine. **Observation 2:** Le deuxième cas concernait un nourrisson âgé de dix mois reçu pour une plaque érythémateuse, atrophique, localisée au niveau du pli inter-fessier, évoluant depuis la naissance. Cet aspect clinique était évocateur d'un lichen scléro-atrophique. L'histologie cutanée a permis de retenir le diagnostic d'hamartome angio-eccrine. **Discussion:** Nous avons rapporté deux observations d'HAE originales par la rareté et les présentations cliniques prêtant à confusion avec un nævus de Spitz et le lichen scléro-atrophique. L'histologie cutanée a été d'un apport considérable.

**Mots clés:** hamartome; Hamartome angio-eccrine; Glande sudorale eccrine

## INTRODUCTION

L'Hamartome Angio-Eccrine (HAE) est une dermatose tumorale bénigne, rare, caractérisée par une prolifération de glandes eccrines et des structures vasculaires du derme moyen [1,2]. La lésion s'observe le plus souvent à la naissance ou dès la petite enfance, avec des présentations cliniques variables, source d'une fréquente errance diagnostique [3,4]. A notre connaissance, très peu de cas sont décrits dans la littérature. Nous rapportons deux (2) cas d'HAE à Dakar chez des nourrissons de phototype VI, originales par la rareté et la présentation clinique.

## OBSERVATION N°1

Il s'agissait d'un nourrisson âgé de 14 mois, de sexe féminin, né à terme, sans antécédents pathologiques particuliers. Elle était reçue en consultation pour une plaque asymptomatique acquise, localisée à la cuisse

droite, évoluant depuis 3 mois. L'état général était conservé avec un bon développement psychomoteur et les constantes étaient normales. Son statut vaccinal était à jour. L'examen physique mettait en évidence une plaque érythémateuse, arrondie, à surface lisse, brunâtre, solitaire, mesurant 8cm de grand axe, siégeant à la face antérieure de la cuisse droite. L'aspect clinique faisait évoquer une tumeur de Spitz (Fig 1). La biopsie cutanée avec examen histopathologique mettait en évidence au sein du derme moyen jusque dans le derme profond, la présence de multiples lobules tumoraux bien limités. Chaque lobule était constitué d'une prolifération de structures ductuales eccrines associées à des structures vasculaires capillaires et une composante adipeuse, le tout au sein d'un stroma myxoïde. Certains canaux ductuaux étaient encombrés de sécrétions sudorales. On constatait également, la présence de nombreuses glandes sudorales eccrines matures sur et autour des prolongements de trajets des lobules. Cet aspect était en faveur d'un HAE (Fig. 2).

**How to cite this article:** Kanté MD1, Diop K, Ngom NB, Andriateloasy S, Deh A, Ndiaye M, Tounkara TM, Ly F, Diallo M. Hamartome angio-eccrine: A propos de deux observations à Dakar, Sénégal. Our Dermatology Online. 2022;13(Supp. 2):45-48.

**Submission:** 23.05.2022; **Acceptance:** 28.06.2022

**DOI:** 10.7241/ourd.2022S2.5

Aucun traitement n'a été administré et au décours d'un suivi de 12 mois, la lésion est restée stable.

## OBSERVATION N°2

Il s'agissait d'un nourrisson âgé de 10 mois, de sexe masculin, né à terme, sans antécédents particuliers. Elle était reçue en consultation pour une plaque asymptomatique localisée au niveau du pli interfessier, évoluant depuis la naissance. L'état général était conservé, avec un bon développement psychomoteur et les constantes normales. Son statut vaccinal était à jour. L'examen physique mettait en évidence un placard érythémateux, à surface atrophique, à bordure surélevée mesurant 12 cm de grand axe et siégeant au niveau du pli inter-fessier. Cet aspect faisait évoquer un lichen scléro-atrophique (Fig. 3). La biopsie cutanée avec examen histologique montrait la présence de multiples lobules tumoraux bien limités au sein du derme. Chaque lobule était constitué d'une prolifération de structures ductuales eccrines associées à des structures vasculaires capillaires et une composante adipeuse. On constatait également, la présence de nombreuses

glandes sudorales eccrines matures autour des prolongements de trajets des lobules. Cet aspect était évocateur d'un HAE

Aucun traitement n'a été administré et au décours d'un suivi de 15 mois, aucune modification clinique de la lésion n'a été identifiée.

## DISCUSSION

Nous avons rapporté deux observations d'HAE particulières par la rareté et les présentations cliniques, source d'une errance diagnostique.

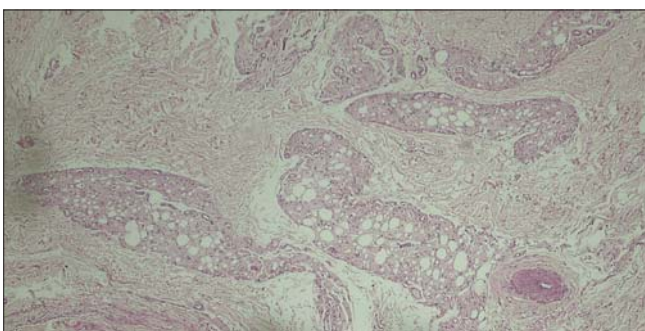
L'HAE est une tumeur bénigne, caractérisée par une prolifération des glandes eccrines et des structures vasculaires dans le derme moyen. C'est une pathologie rare dont l'incidence est inconnue [2]. Très peu de cas sont rapportés dans la littérature. Il s'agit le plus souvent des cas cliniques ou des séries ouvertes. Andrew T. Patterson et al. avait rapporté une série de 18 cas dans des Hôpitaux universitaires américains sur une période allant de 1996 à 2014 [2,5].

Il survient le plus souvent à la naissance comme rapportée dans notre deuxième observation. Parfois, l'âge de survenue est décalé dans la petite enfance, comme constatée dans notre première observation. Des cas sont aussi rapportés chez des adolescents [6,7].

Les présentations cliniques de l'HAE sont variables. Elles sont le plus souvent à type de plaque érythémateuse ou érythémato-télangiectasique, comme rapportée dans notre première observation et qui prêtait à confusion avec une tumeur de Spitz. L'aspect clinique à type de plaque érythémateuse atrophique retrouvé dans notre



**Figure 1:** Plaque érythémateuse solitaire non squameuse à la face antérieure de la cuisse droite.



**Figure 2:** Prolifération des structures vasculaires et eccrines et une composante adipeuse au sein du derme moyen et profond (H.E. x 40).



**Figure 3:** Placard érythémateux atrophique à bordure surélevée du pli inter-fessier.

deuxième observation est rarement rapporté à notre connaissance. Celle-ci, vu sa topographie au niveau du pli inter-fessier faisait évoquer également un lichen scléro-atrophique. D'autres aspects cliniques de l'HAE sont rapportés: à type de papule ou de nodule de topographie variable [2,8]. Une hypersudation et une douleur à la pression de la lésion d'HAE sont parfois décrites. L'hypersudation est vraisemblablement une expression de sa composante eccrine. Cependant, elle peut être absente dans certains cas comme chez nos patients.

Le diagnostic de l'HAE est histologique. L'HAE se situe généralement dans le derme profond, contenant un nombre accru de structures eccrines et de nombreux canaux capillaires entourant ou entremêlés avec les structures eccrines. Les critères histologiques peuvent inclure: une hyperplasie des glandes eccrines normales ou dilatées, une association étroite des structures eccrines avec les foyers angiomateux capillaires et la présence de structures lipomateuses, pilaires, mucineuses et/ou lymphatiques [5,9,10]. Nos patients ne présentaient pas de composantes pilaires ni lymphatiques alors que les composantes lipomateuses et mucineuses étaient retrouvées.

L'étude immuno-histochimique n'est pas nécessaire pour le diagnostic, elle montre un marquage positif des structures glandulaires pour la PS100, l'ACE et le CD44 alors que le stroma est positivement marqué pour le CD34 [5,6].

Sur le plan thérapeutique, l'ablation chirurgicale reste le traitement de référence pour les patients qui présentent des lésions symptomatiques (invalidants), d'hypertrophie progressive ou de sensibilité esthétique. La régression spontanée de l'HAE est extrêmement rare avec un seul rapport de régression partielle. Les lésions asymptomatiques ne nécessitent pas de traitement et peuvent être observées [2], comme chez nos deux patients. La douleur et l'hyperhidrose peuvent être gérées respectivement par des analgésiques et la toxine botulique. On pense que la douleur et la sensibilité locales proviennent de la compression nerveuse par les éléments hamartomateux par opposition à la prolifération des composants neuraux eux-mêmes. Les traitements au laser à colorant pulsé et au laser Nd: YAG ont montré une efficacité minimale [2,11].

## CONCLUSION

Nous rapportons deux observations d'HAE particulières par la rareté et les présentations cliniques. Le diagnostic reposait sur l'histopathologie cutanée.

## Consent

The examination of the patient was conducted according to the principles of the Declaration of Helsinki. The authors certify that they have obtained all appropriate patient consent forms, in which the patients gave their consent for images and other clinical information to be included in the journal. The patients understand that their names and initials will not be published and due effort will be made to conceal their identity, but that anonymity cannot be guaranteed.

## REFERENCES

1. Gadory A, Belhadjali H, Bayle P, Albès B, Lamant L, Bazex J. Hamartome angio-eccrine. *Ann Dermatol Venerol*. 2003;3:337-9.
2. Patterson AT, Kumar MG, Bayliss SJ, Witman PM, Dehner LP, Gru AA. Eccrine angiomatous hamartoma: a clinicopathologic review of 18 cases. *Am J Dermatopathol*. 2016;6:413-7.
3. Michel JL, Secchi T, Balme B, Barrut D, Thomas L, Moulin G. Hamartome angio-eccrine congénital. *Ann Dermatol Venerol*. 1997;124:623-5.
4. Kar S, Krishnan A, Gangane N. Eccrine angiomatous hamartoma: a rare skin lesion with diverse histological features. *Indian J Dermatol*. 2012;3:225-7.
5. Shin J, Jang YH, Kim SC, Kim YC. Eccrine Angiomatous Hamartoma: A Review of Ten Cases. *Ann Dermatol Venerol*. 2013;2:208-12.
6. Mnif H, Abid N, Amouri M, Kossentini M, Turki H, Sallemi T. Hamartome angio-eccrine. *Ann Dermatol Venerol*. 2012;3:225-70.
7. Tantanangul P, Kootiratrakarn T, Wessagowit V, Kattipathanapong P, Sudtikoonaseth P. Eccrine angiomatous hamartoma in an adolescent. *Case Rep Dermatol*. 2015;7:233-6.
8. Kaletti A, Chiaverini C, Giacchero D, Bahadoran P, Lacour JP. Un cas d'hamartome angio-eccrine avec un patron spitzoïde en dermoscopie. *Ann Dermatol Venerol*. 2017;12:S176.
9. Toll A, Gallardo F, Jugla A, Pujol RM. Multifocal segmental hyperthermic and hyperhidrotic naevus flammeus: A peculiar variant of eccrine angiomatous hamartoma. *Clin Dermatol*. 2007;32:696-8.
10. Pelle MT, Pride HB, Tyler WB. Eccrine angiomatous hamartoma. *J AM Acad Dermatol*. 2002;3:429-35.
11. Barco D, Baselga E, Alegre M, Curell R, Alomar A. Successful treatment of eccrine angiomatous hamartoma with botulinum toxin. *Arch Dermatol*. 2009;145:241-3.

Mamadou Diouldé 1 Kanté, et al. This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited.

**Source of Support:** This article has no funding source, **Conflict of Interest:** The authors have no conflict of interest to declare.