Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology

3 TOM | VOL. 8 | 2021

https://doi.org/10.21682/2311-1267-2021-8-3-116-122

Проблемы клинико-морфологической диагностики оролабиального меланоза у детей

Т.С. Белышева¹, Я.В. Вишневская¹, И.С. Клецкая², А.В. Миченко³, А.С. Волкова¹, Т.Т. Валиев^{1, 4}, С.Н. Михайлова¹, С.Р. Варфоломеева¹

¹ФГБУ «НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина» Минздрава России; Россия, 115478, Москва, Каширское шоссе, 23; ²РДКБ ФГАОУ ВО РНИМУ им. Н.И. Пирогова Минздрава России; Россия, 117997, Москва, Ленинский просп., 117; ³ФГБУ ДПО «Центральная государственная медицинская академия» Управления делами Президента Российской Федерации; Россия, 121359, Москва, ул. Маршала Тимошенко, 19, стр. 1А; ⁴ФГАОУ ВО Первый МГМУ им. И.М. Сеченова Минздрава России (Сеченовский Университет);

> Россия, 119991, Москва, ул. Большая Пироговская, 2, стр. 4 Контактные данные: Татьяна Сергеевна Белышева klinderma@bk.ru

Пигментные новообразования кожи и слизистых оболочек представляют собой гетерогенную группу доброкачественных и злокачественных новообразований, некоторые из них встречаются в практике детского онколога крайне редко. Оролабиальный меланоз относится к доброкачественной пигментной патологии кожи и слизистых оболочек, требует проведения дифференциальной диагностики с эфелидами, меланомой, а при локализации на языке — с пигментированными грибовидными сосочками языка. В настоящей статье приводится ранее не описанный в отечественной литературе клинический случай оролабиального меланоза у ребенка 9 лет с локализацией на языке. Подробно освещены клинические, дерматоскопические, иммуноморфологические и дифференциально-диагностические особенности данной патологии.

Ключевые слова: оролабиальный меланоз, меланотическое пятно, меланотическая макула, клиническая картина, дерматоскопия, диагностика, дети

Для цитирования: Бельшева Т.С., Вишневская Я.В., Клецкая И.С., Миченко А.В., Волкова А.С., Валиев Т.Т., Михайлова С.Н., Варфоломеева С.Р. Проблемы клинико-морфологической диагностики оролабиального меланоза у детей. Российский журнал детской гематологии и онкологии 2021;8(3):116—22.

Problems of clinical and morphologic diagnosis of orolabial melanosis in children

T.S. Belysheva¹, Ya.V. Vishnevskaya¹, I.S. Kletskaya², A.V. Michenko³, A.S. Volkova¹, T.T. Valiev^{1, 4}, S.N. Mikhailova¹, S.R. Varfolomeeva¹

¹Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology of N.N. Blokhin National Medical Research Centre of Oncology, Ministry of Health of Russia; 23 Kashirskoe Shosse, Moscow, 115478, Russia; ²Russian Children's Clinical Hospital of the N.I. Pirogov Russian National Research Medical University, Ministry of Health of Russia; 117 Leninskiy Prosp., Moscow, 117997, Russia; ³Central State Medical Academy of the Administrative Department of the President of the Russian Federation; Bld. 1A, 19 Marshal Timoshenko St., Moscow, 121359, Russia; ⁴I.M. Sechenov First Moscow State Medical University, Ministry of Health of Russia (Sechenov University); Bld. 4, 2 Bolshaya Pirogovskaya St., Moscow, 119991, Russia

Pigmented neoplasms of the skin and mucous membranes are a heterogeneous group of benign and malignant neoplasms, some of which are extremely rare in the practice of pediatric oncologist. Orolabial melanosis refers to a benign pigmented pathology of the skin and mucous membranes, requires differential diagnosis with ephelids, melanoma, and when localized on the tongue — with pigmented fungiform papillae of the tongue.

This article presents a clinical case of orolabial melanosis with localization on the tongue in a 9-year-old child that was not previously described in the domestic literature. The clinical, dermatoscopic, immuno-morphological and differential diagnostic features of this pathology are described in detail.

Key words: orolabial melanosis, melanotic spot, melanotic macula, clinical picture, dermatoscopy, diagnostics, children

For citation: Belysheva T.S., Vishnevskaya Ya.V., Kletskaya I.S., Michenko A.V., Volkova A.S., Valiev T.T., Mikhailova S.N., Varfolomeeva S.R. Problems of clinical and morphologic diagnosis of orolabial melanosis in children. Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology 2021;8(3):116–22.

Информация об авторах

Т.С. Белышева: д.м.н., ведущий научный сотрудник научно-консультативного отделения НИИ детской онкологии и гематологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина, e-mail: klinderma@bk.ru; https://orcid.org/0000-0001-5911-553X

Я.В. Вишневская: к.м.н., врач патологоанатомического отделения НИИ клинической онкологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина, e-mail: yana_vishn@list.ru; https://orcid.org/0000-0002-4066-179X

И.С. Клецкая: врач-патологоанатом патологоанатомического отделения Российской детской клинической больницы РНИМУ им. Н.И. Пирогова, e-mail: ikletskaya@gmail.com; https://orcid.org/0000-0002-8552-7682



Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology



- А.В. Миченко: к.м.н., доцент кафедры дерматовенерологии и косметологии Центральной государственной медицинской академии; https://orcid.org/0000-0002-2985-5729
- А.С. Волкова: врач-ординатор НИИ детской онкологии и гематологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина,
- e-mail: anastasia.sergeevna.volkova@gmail.com; https://orcid.org/0000-0003-1709-0498
- Т.Т. Валиев: д.м.н., заведующий отделением детской онкологии и гематологии (химиотерапия гемобластозов) № 1 НИИ детской онкологии и гематологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина, доцент кафедры онкологии Первого МГМУ им. И.М. Сеченова, e-mail: timurvaliev@mail.ru; https://orcid.org/0000-0002-1469-2365
- С.Н. Михайлова: к.м.н., заведующая научно-консультативным отделением НИИ детской онкологии и гематологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина, e-mail: astra-sn@mail.ru; https://orcid.org/0000-0002-9502-072X
- С.Р. Варфоломеева: д.м.н., профессор, директор НИИ детской онкологии и гематологии НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина, e-mail: s.varfolomeeva@ronc.ru; https://orcid.org/0000-0001-6131-1783

Information about the authors

- T.S. Belysheva: Dr. of Sci. (Med.), Leading Researcher Scientific Advisory Division Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology of N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, e-mail: klinderma@bk.ru; https://orcid.org/0000-0001-5911-553X
- Ya.V. Vishnevskaya: Cand. of Sci. (Med.), Pathologist Pathology Department Research Institute of Clinical Oncology of N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, e-mail: yana_vishn@list.ru; https://orcid.org/0000-0002-4066-179X
- I.S. Kletskaya: Pathologist Pathological Department t the Russian Children's Clinical Hospital of the N.I. Pirogov Russian National Research Medical University, Ministry of Health of Russia, e-mail: ikletskaya@gmail.com; https://orcid.org/0000-0002-8552-7682
- A.V. Michenko: Cand. Of Sci. (Med.), Associate Professor of the Department of Dermatovenereology and Cosmetology of the Central State Medical Academy of the Administrative Department of the President of the Russian Federation; https://orcid.org/0000-0002-2985-5729
- A.S. Volkova: Resident of the Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology at N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, e-mail: anastasia.sergeevna.volkova@gmail.com; https://orcid.org/0000-0003-1709-0498
- T.T. Valiev: Dr. of Sci. (Med.), Head of the Department of Pediatric Oncology and Hematology (Chemotherapy of Hemoblastosis) No. 1 of the Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology at the N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, Associate Professor Department of Oncology at I.M. Sechenov First Moscow State Medical University, Ministry of Health of Russia, e-mail: timurvaliev@mail.ru; https://orcid.org/0000-0002-1469-2365
- S.N. Mikhailova: Cand. of Sci. (Med.), Head of Scientific Advisory Division Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology of N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, e-mail: astra-sn@mail.ru; https://orcid.org/0000-0002-9502-072X
- S.R. Varfolomeeva: Dr. of Sci. (Med.), Professor, Director of the Research Institute of Pediatric Oncology and Hematology of N.N. Blokhin National Medical Research Center of Oncology, Ministry of Health of Russia, e-mail: s.varfolomeeva@ronc.ru; https://orcid.org/0000-0001-6131-1783

Вклад авторов

Все авторы: обзор литературы по теме статьи, анализ и интерпретация клинических и диагностических данных, разработка концепции и дизайна статьи, написание статьи, окончательное одобрение рукописи

Authors' contributions

All authors: review of publications on the topic of the article, analysis and interpretation of clinical and diagnostic data, article concept and design development, writing the text of the article, article final approvement

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов. / Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки. / Funding. The study was performed without external funding.

Введение

Гиперпигментация кожи и слизистой оболочки ротовой полости - редко встречающееся в клинической практике состояние, к развитию которого могут приводить физиологические и патологические процессы. Описаны примеры физиологического накопления меланина на участках кожи или слизистой, реактивной пигментации вследствие приема лекарственных препаратов (хлорохина, пероральных гормональных контрацептивов, химиотерапевтических агентов и др.), а также в результате системных заболеваний, например при синдроме Пейтца-Егерса, болезни Аддисона. Наиболее часто гиперпигментация кожи и слизистых оболочек представлена в виде меланотического пятна (оролабиальный меланоз, меланотическая макула) округлой формы, светлоили темно-коричневого цвета, небольшого размера. Очаги гиперпигментации могут быть единичными или множественными, размером от 0,1 до 2,0 см [1].

Оролабиальный меланоз чаще встречается у взрослых женщин и может протекать с образованием пигментных пятен на коже красной каймы губ, слизистых оболочках губ, щек, десен и/или языка [2, 3].

Z.-Y. Shen et al. приводят описание оролабиального меланоза у 52 пациентов (средний возраст — 47,3 года). В 36,5 % отмечены поражения нижней губы. Язык вовлекался в процесс чрезвычайно редко — в 1,9 % случаев [4].

Клинически дифференциальный диагноз оролабиального меланоза при локализации пигментных пятен на коже губ следует проводить с эфелидами пигментными пятнами наследственного происхождения из группы первичных гипермеланозов, для которых характерно симметричное расположение и множественный характер. Кроме того, в отличие от эфелидов меланотические пятна при оролабиальном меланозе на коже губ не темнеют при инсоляции (рис. 1) [5].

При наличии солитарных очагов пигментации на слизистых оболочках ротовой полости или красной кайме губ основной патологией, требующей первоочередного исключения, является меланома слизистых оболочек полости рта. При клиническом осмотре для оролабиального меланоза характерна равномерная коричневая окраска очага, который имеет вид пятна, не возвышается над поверхностью и имеет одинако-

Poccийский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ



Рис. 1. Множественные эфелиды на коже и красной кайме губ у пациента 9 лет с синдромом Пейтца—Егерса (клиническое наблюдение д.м.н. Т.С. Белышевой)

Fig. 1. Multiple ephelides on the skin and red border of the lips in a 9-year-old patient with Peitz-Yegers syndrome (clinical observation by Dr. of Sci. (Med.) T.S. Belysheva)

вую плотность с окружающими тканями. Также для оролабиального меланоза нетипично распространение пигментации за пределы слизистой оболочки или красной каймы губ на окружающую кожу. В то время как меланома слизистых оболочек полости рта при первичном обследовании в большинстве случаев уже пальпируется, определяется асимметрия окраски, помимо зон коричневого цвета присутствуют участки серо-голубого, красного или белого цветов (рис. 2).



Рис. 2. Меланома слизистой оболочки полости рта у пациента 67 лет (клиническое наблюдение профессора А.П. Полякова). В детском возрасте меланома полости рта является казуистикой

Fig. 2. Melanoma of the oral mucosa in a 67-year-old patient (clinical observation by Professor A.P. Polyakov). In childhood, oral melanoma is a casuistry

Из инструментальных методов в целях дифференциальной диагностики оролабиального меланоза и меланомы слизистых оболочек полости рта в первую очередь используется такой неинвазивный метод, как дерматоскопия. Для оролабиального меланоза, как и лентигиноза, при дерматоскопическом исследовании характерна монохромность — наличие линий и точек коричневого или серого цветов [6], симме-

тричность — очаг имеет однотипное распределение пигмента и дерматоскопических структур по всей площади пятна (рис. 3). При меланоме слизистых оболочек полости рта, напротив, дерматоскопически определяется полихромность — помимо коричневых полос выявляются участки красного, синего или белого цветов, при этом отмечается асимметрия цвета и дерматоскопических структур (рис. 4).

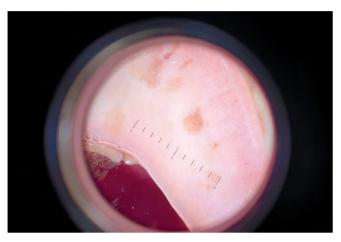


Рис. 3. Дерматоскопическая картина лентигиноза слизистой оболочки полости рта у пациента 6 лет с синдромом Пейтца—Егерса, × 10 (клиническое наблюдение д.м.н. Т.С. Белышевой)

Fig. 3. Dermatoscopic picture of lentiginosis of the oral mucosa in a 6-year-old patient with Peitz—Yegers syndrome, × 10 (clinical observation by Dr. of Sci. (Med.) T.S. Belysheva)



Рис. 4. Дерматоскопическая картина меланомы слизистой оболочки полости рта у пациентки 56 лет, \times 10 (клиническое наблюдение профессора А.П. Полякова)

Fig. 4. Dermatoscopic picture of oral mucosa melanoma in a 56-year-old patient, \times 10 (clinical observation by Professor A.P. Polyakov)

В случаях локализации очагов оролабиального меланоза на слизистой оболочке языка следует проводить дифференциальный диагноз с пигментированными грибовидными сосочками языка (ПГСЯ) — доброкачественной приобретенной пигментацией,

Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology

которая, как правило, формируется у людей с темными фототипами (часто азиатского происхождения или у темнокожих) [7]. Обычно ПГСЯ диагностируются во взрослом возрасте, нередко сопровождаясь пигментацией других участков (проксимальные околоногтевые складки, десны), но имеются единичные описания случаев или небольших серий случаев ПГСЯ у детей в возрасте от 5 до 17 лет. Клинически при ПГСЯ определяется пигментация грибовидных сосочков по типу «булыжной мостовой». В зависимости от локализации и степени вовлеченности всех прилежащих либо только единичных сосочков выделяют 3 типа ПГСЯ по J.M. Holzwanger [8]:

I — гиперпигментированное пятно расположено на переднебоковой поверхности или на кончике языка, каждый отдельный сосочек гиперпигментирован;

II — гиперпигментация отмечается в 3—7 грибовидных сосочках, разбросанных или сгруппированных на дорсальной поверхности языка, чередующихся с нормально окрашенными грибовидными и нитевидными сосочками;

III – полная гиперпигментация каждого грибовидного сосочка на дорсальной поверхности языка.

При дерматоскопическом исследовании для ПГСЯ характерны пигментация сосочков по типу «булыжной мостовой», которые чередуются с сосочками с ветвящимися сосудами в основании, образующими картину по типу «лепестков розы». Пигментация межсосочкового эпителия не характерна.

При гистологическом исследовании ПГСЯ определяются отложение меланина в базальных кератиноцитах и меланофаги в собственной пластинке слизистой оболочки. Воспалительная инфильтрация не характерна.

Оролабиальный меланоз редко встречается в детском возрасте. В педиатрической практике заболевание носит врожденный характер. Учитывая его редкую встречаемость, в литературных источниках практически отсутствуют данные об эпидемиологии оролабиального меланоза у детей. М.А. Dohil et al. описывают 5 клинических случаев оролабиального меланоза с локализацией на языке у детей. Во всех наблюдениях заболевание было выявлено при рождении. Отмечался пропорциональный рост образований соответственно возрасту ребенка. Однако позднее всем пациентам была проведена гистологическая верификация диагноза — во всех случаях отмечалось повышение содержания меланина в базальном слое эпидермиса с нормальным содержанием меланоцитов [9].

Гистологическое исследование пораженных участков при оролабиальном меланозе позволяет выявить повышенное содержание меланина в кератиноцитах базального слоя эпителия при нормальном или повышенном количестве меланоцитов [10]. Также может определяться легкий гиперкератоз и/или акантоз в отсутствие удлинения дермальных гребней [11, 12]. В поверхностной части собственной пластинки возможно обнаружение «недержания» пигмента

(феномен, характеризующий выпадение пигмента из меланоцитов и кератиноцитов базального слоя эпидермиса в сосочковый слой дермы с последующим поглощением его меланофагами), меланофагов, признаков хронического воспаления разной степени выраженности [2]. Основное гистологическое отличие оролабиального меланоза от случаев пигментных невусов и/или меланомы — отсутствие в очагах поражения гнезд меланоцитов либо клеточной атипии.

F. Savoia et al. приводят случай оролабиального меланоза с локализацией на языке у ребенка в возрасте 10 недель. Авторы описывают 4 округлых и 1 линейное пятно в области языка, максимальными размерами до 12 мм (линейное образование). При обследовании не было отмечено случаев меланомы в семейном анамнезе, полипоза желудочно-кишечного тракта, приема токсичных препаратов матерью во время беременности. Таким образом, были исключены экзогенные причины гиперпигментации, а также системные заболевания. Гистологическое и дерматоскопическое исследования не проводились, диагноз был установлен на основании клинических данных и анамнеза. Ребенок находился под тщательным наблюдением. С возрастом отмечался пропорциональный рост образования [13].

В работе С. Киmar et al. приводится описание пигментации языка у ребенка в возрасте 5 месяцев. Впервые пигментация языка была выявлена при рождении, других участков пигментации на теле не отмечалось. Сопутствующие заболевания выявлены не были. Авторы отмечают, что оролабиальный меланоз является наиболее частой причиной пигментации слизистой оболочки ротовой полости у взрослых пациентов во 2-й декаде жизни, но имеется небольшое число публикаций, посвященных оролабиальному меланозу с локализацией на языке у новорожденных и детей раннего возраста [14].

Остается дискутабельным вопрос о необходимости проведения биопсии у таких больных. Согласно анализу данных литературы, большинство авторов придерживаются тактики ведения пациентов с проведением гистологического исследования биопсийного материала в целях подтверждения диагноза и исключения меланомы слизистой полости рта. В отношении тактики ведения этой нозологии, учитывая длительный, доброкачественный характер течения оролабиального меланоза, часто рекомендовано наблюдение.

Следовательно, оролабиальный меланоз представляет собой чрезвычайно редкий в педиатрической практике, доброкачественно протекающий процесс. В постановке диагноза важен подробный сбор анамнеза и тщательное проведение осмотра пациента с дерматоскопическим исследованием в целях проведения дифференциальной диагностики с доброкачественными нарушениями пигментации и меланомой слизистой полости рта, а также исключения других заболеваний, приводящих к развитию гиперпигментации. При сложных клинических случаях показана гистологическая верификация диагноза [4, 9, 13, 14].

Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ



Описание клинического случая

Пациентка, 9 лет. Родители обратились в НИИ детской онкологии и гематологии ФГБУ «НМИЦ онкологии им. Н.Н. Блохина» Минздрава России с жалобами на пигментное образование языка. По месту жительства данное образование было расценено как невус (?).

При сборе анамнеза оказалось, что пигментное образование присутствует у ребенка с рождения, увеличивается пропорционально росту ребенка, в последнее время мать девочки отмечает увеличение диаметра образования (рис. 5).



Рис. 5. Внешний вид пигментного образования языка при объективном

Fig. 5. The appearance of the pigmented formation of the tongue during an obiective examination

При осмотре у ребенка III фототип кожи по Фитипатрику. Ребенок метис, мать девочки азиатского происхождения, отец — европейского (славянского). При осмотре других пигментных поражений слизистых выявлено не было, немногочисленные меланоцитарные невусы кожи без признаков активации.

Температура тела ребенка была нормальной. Периферические лимфатические узлы при осмотре и пальпации не увеличены. Печень и селезенка при пальпации и перкуссии были нормальных размеров. Физиологические отправления в норме.

В целях уточнения клинического диагноза было проведено дообследование в объеме дерматоскопического исследования, по данным которого определялась серо-коричневая гомогенная пигментация как нитевидных, так и грибовидных сосочков с вовлечением участков межсосочкового эпителия со скоплениями серо-коричневых точек, группирующихся с образованием параллельных серо-коричневых полос, совпадающих с основаниями сосочков (рис. 6).

Выполнено иссечение образования. Ранний послеоперационный период протекал без осложнений.

Проведено гистологическое исследование полученного материала: участки ткани языка покрыты многослойным плоским неороговевающим эпителием. Базальный слой кератиноцитов с повышенным содержанием пигмента коричневого цвета, между кератиноцитами



Рис. 6. Дерматоскопическое исследование пигментного образования

Fig. 6. Dermatoscopic examination of the pigmented formation of the tongue,

определялись немногочисленные меланоциты среднего размера, с округлым базофильным ядром и перинуклеарным просветлением (рис. 7, 8). При иммуногистохимическом исследовании в них выявлена экспрессия Sox10 (рис. 9). В собственной пластинке слизистой оболочки в проекции вышеописанных изменений в соединительно-тканных основаниях грибовидных сосочков определялись скопления меланофагов (негативная реакция при окраске по Перлсу) и умеренно выраженная лимфоцитарная инфильтрация. Элементов с атипичной морфологией не выявлено. Митотическая активность не определялась. Окраска по Перлсу позволяет обнаружить

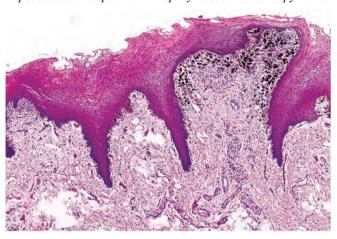


Рис. 7. Участок ткани языка, покрытый многослойным плоским неороговевающим эпителием. В собственной пластинке слизистой оболочки (в соединительно-тканных основаниях грибовидного сосочка) определяются многочисленные скопления клеток с высоким содержанием пигмента в цитоплазме. Окраска гематоксилином и эозином. × 100

Fig. 7. An area of tongue tissue covered with stratified squamous nonkeratinizing epithelium. In the lamina propria of the mucous membrane (in the connective tissue bases of the mushroom papilla), numerous clusters of cells with a high content of pigment in the cytoplasm are determined. Stained with hematoxylin and eosin, × 100

Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology



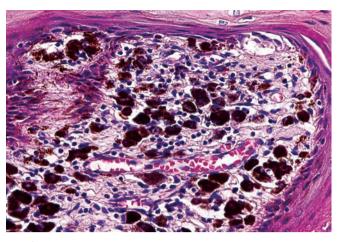


Рис. 8. Базальный слой кератиноцитов с повышенной пигментацией, между кератиноцитами определяются немногочисленные меланоциты среднего размера с округлым базофильным ядром и перинуклеарным просветлением. Скопления меланофагов и лимфоцитов субэпителиально. Окраска гематоксилином и эозином, × 200

Fig. 8. Basal layer of keratinocytes with increased pigmentation; between the keratinocytes, there are few medium-sized melanocytes with a rounded basophilic nucleus and perinuclear enlightenment. Clusters of melanophages and lymphocytes are subepithelial. Stained with hematoxylin and eosin, \times 200

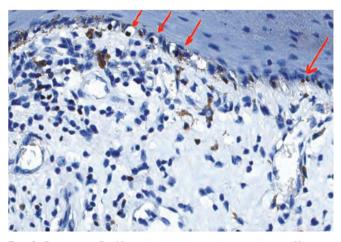


Рис. 9. Экспрессия Sox 10 в меланоцитах указана стрелками. Иммуногистохимический препарат, × 200

Fig. 9. Sox 10 expression in melanocytes is indicated by arrows. Immunohistochemical preparation, \times 200

ферритин и гемосидерин в тканях, косвенно указывает на механическую травму ткани. При настоящем исследовании отмечена негативная окраска по Перлсу, что свидетельствовало о меланоцитарной природе пигментации. Гистологические изменения соответствовали оролабиальному меланозу с «недержанием» пигмента, вероятно, в результате хронической травматизации.

Sox10— транскрипционный фактор, играющий определяющую роль в дифференцировке производных нервного

гребешка, экспрессируется в ядрах меланоцитов. В приведенном случае позволяет лучше визуализировать меланоциты, расположенные среди кератиноцитов.

Следовательно, на основании клинических, дерматоскопических, морфоиммунологических данных был установлен диагноз оролабиального меланоза с локализацией на языке. Ребенок находится под наблюдением, проходит осмотры дерматолога 1 раз в год.

Обсуждение

Редкая частота встречаемости оролабиального меланоза, протекающего с поражением языка, у детей обусловливает недостаточную освещенность данной нозологии в литературе и объективные сложности в принятии врачами клинических решений.

При выявлении солитарных очагов пигментации на слизистой оболочке языка следует проводить дифференциальную диагностику с другими вариантами доброкачественной пигментации слизистой оболочки языка и крайне редко с меланомой по анамнестическим данным, клиническим и дерматоскопическим признакам, при необходимости – верифицировать диагноз при помощи патоморфологического исследования. В представленном клиническом случае мать ребенка отметила увеличение размеров пигментного образования, в связи с чем проведено гистологическое исследование, полностью исключившее злокачественную природу пигментной патологии слизистой языка. Локализованные формы оролабиального меланоза требуют наблюдения, тогда как в случаях распространенного поражения успешное лечение оролабиального меланоза возможно с применением методов лазерной коагуляции пигмента в области слизистых оболочек полости рта [15, 16].

Таким образом, настоящее описание клинического случая представляет интерес в силу редкости оролабиального меланоза в детском возрасте. Согласно данным литературы и настоящего наблюдения, оролабиальный меланоз у детей наиболее характерен для пациентов азиатского происхождения. При наличии клинических и дерматоскопических признаков, соответствующих меланозу слизистых оболочек, гистологическая верификация диагноза обычно не требуется, поскольку меланома в детском возрасте встречается крайне редко, и поражение слизистых оболочек описано лишь в единичных случаях [15, 17, 18]. В силу доброкачественного характера оролабиального меланоза представляется целесообразной тактика наблюдения детей с этим нарушением пигментации, обязательно с дерматоскопическим исследованием и фотофиксацией.



Российский журнал ДЕТСКОЙ ГЕМАТОЛОГИИ и ОНКОЛОГИИ

Russian Journal of Pediatric Hematology and Oncology



ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

- Müller S. Melanin-associated pigmented lesions of the oral mucosa: presentation, differential diagnosis, and treatment. Dermatol Ther 2010;23(3):220-9. doi: 10.1111/j.1529-8019.2010.01319.x.
- Kaugars G.E., Heise A.P., Riley W.T., Abbey L.M., Svirsky J.A. Oral melanotic macules. A review of 353 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1993;76(1):59–61. doi: 10.1016/0030-4220(93)90295-f.
- Gupta G., Williams R.E., Mackie R.M. The labial melanotic macule: a review of 79 cases. Br J Dermatol 1997;136(5):772–5.
 PMID: 9205516
- Shen Z.-Y., Liu W., Bao Z.-X., Zhou Z.-T., Wang L.-Z. Oral melanotic macule and primary oral malignant melanoma: Epidemiology, location involved, and clinical implications. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2011;112(1):e21–5. doi: 10.1016/j.tripleo.2011.02.040.
- Ho K.K., Dervan P., O'Loughlin S., Powell F.C. Labial melanotic macule: a clinical, histopathologic, and ultrastructural study. J Am Acad Dermatol 1993;28(1):33–9. doi: 10.1016/0190-9622(93)70005-e.
- Lee J.S., Mun J.H. Dermoscopy of venous lake on the lips: A comparative study with labial melanotic macule. PLoS One 2018;13(10):e0206768. doi: 10.1371/journal.pone.0206768.
- Chessa M.A., Patrizi A., Sechi A., Virdi A., Leuzzi M., Neri I. Pigmented fungiform lingual papillae: dermoscopic and clinical features. J Eur Acad Dermatol Venereol 2018;32(6):935–9. doi: 10.1111/jdv.14809.
- Holzwanger J.M., Rodolph R.I., Heaton C.L. Pigmented fungiform papillae of the tongue: a common variant of oral pigmentation. Int J Dermatol 1974;13(6):403–8. doi: 10.1111/j.1365-4362.1974.tb05073.x.
- Dohil M.A., Billman G., Pransky S., Eichenfield L.F. The Congenital Lingual Melanotic Macule. Arch Dermatol 2003;139(6):767–70. doi: 10.1001/archderm.139.6.767.
- Page L.R., Corio R.L., Crawford B.E., Giansanti J.S., Weathers D.R. The oral melanotic macule. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1977;44(2):219–26. doi: 10.1016/0030-4220(77)90272-9.

- 11. Meleti M., Vescovi P., Mooi W.J., van der Waal I. Pigmented lesions of the oral mucosa and perioral tissues: a flow-chart for the diagnosis and some recommendations for the management. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2008;105(5):606–16. doi: 10.1016/j.tripleo.2007.07.047.
- 12. Eisen D. Disorders of pigmentation in the oral cavity. Clin Dermatol 2000;18(5):579–87. doi: 10.1016/s0738-081x(00)00148-6.
- Savoia F., Ricci L., Patrizi A., Gaddoni G. Congenital Melanotic Macules of the Tongue. A Case Report and Brief Review of the Literature. Pediatr Dermatol 2014;32(1):109–12. doi: 10.1111/pde.12472.
- 14. Kumar C., Sharma D., Pandita A., Shastri S. Congenital Lingual Melanotic Macule: Rare entity in infants. Sultan Qaboos Univ Med J 2015;15(3):e440–1. doi: 10.18295/squmj.2015.15.03.024.
- Mun S.J., Jung H.Y., Frolova A., Park K.D., Rhee C.S. Malignant mucosal melanoma in the olfactory cleft of a 10-year-old child. Auris Nasus Larynx 2013;40(2):235–8. doi: 10.1016/j.anl.2012.05.001.
- Abduljabbar T., Vohra F., Akram Z., Ghani S.M.A., Al-Hamoudi N., Javed F. Efficacy of surgical laser therapy in the management of oral pigmented lesions: A systematic review. J Photochem Photobiol B 2017;173:353–9. doi: 10.1016/j.jphotobiol.2017.06.016.
- 17. Волгарева Г.М., Белышева Т.С., Завалишина Л.Э., Хестанов Д.Б., Бурова О.С., Вишневская Я.В., Алиев М.Д. Врожденное пигментное новообразование кожи у ребенка: опыт диагностики. Российский биотерапевтический журнал 2019;18(3):63–70. doi: 10.17650/1726-9784-2019-18-3-63-70. [Volgareva G.M., Belysheva T.S., Zavalishina L.E., Khestanov D.B., Burova O.S., Vishnevskaya Ya.V., Aliev M.D. Inborn pigment skin malformation in a child: practice of diagnostics. Rossiyskiy bioterapevticheskiy zhurnal = Russian Journal of Biotherapy 2019;18(3):63–70. (In Russ.)].
- Belysheva T.S., Vishnevskaya Y.V., Nasedkina T.V., Abramov I.S., Orlova K.V., Lubchenko L.N., Utyashev I.A., Doroshenko M.B., Demidov L.V., Aliev M.D., Emelyanova M.A. Melanoma arising in a giant congenital melanocytic nevus: two case reports. Diagnostic Pathology 2019;14(1):21–9. doi: 10.1186/s13000-019-0797-1.

Статья поступила в редакцию: 30.07.2021. Принята в печать: 20.08.2021. Article was received by the editorial staff: 30.07.2021. Accepted for publication: 20.08.2021.