

• 病例报告 •

## 口咽腺样囊性癌误诊 1 例

赵九洲<sup>1</sup> 李珂<sup>1</sup> 韩晓东<sup>2</sup> 石照辉<sup>3</sup> 曾宪海<sup>1</sup> 张相民<sup>1</sup>

**[摘要]** 腺样囊性癌好发于头颈部唾液腺腺体,是一种恶性程度高、放化疗抵抗及预后较差的恶性肿瘤。腺样囊性癌临床病程进展缓慢,容易误诊,主要诊疗手段是在多学科会诊模式下的个体化精准治疗,即手术治疗和放化疗。腺样囊性癌容易复发和血道转移,以传统放化疗为基础的治疗手段在过去的 30 年里未取得令人满意的疗效,如何早发现、早诊断及早治疗是临床医师面临的迫切需要解决的难题。

**[关键词]** 口咽;腺样囊性癌;误诊;皮瓣修复

**DOI:**10.13201/j.issn.2096-7993.2023.10.015

**[中图分类号]** R739.6 **[文献标志码]** D

### Misdiagnosis of adenoid cystic carcinoma of oropharynx: a case report

ZHAO Jiuzhou<sup>1</sup> LI Ke<sup>1</sup> HAN Xiaodong<sup>2</sup> SHI Zhaohui<sup>3</sup>  
ZENG Xianhai<sup>1</sup> ZHANG Xiangmin<sup>1</sup>

(<sup>1</sup>Department of Head and Neck Surgery, Shenzhen Otolaryngology Research Institute, Shenzhen Longgang ENT Hospital, Shenzhen, 518172, China; <sup>2</sup>Department of Imaging, Shenzhen Otolaryngology Research Institute, Shenzhen Longgang ENT Hospital; <sup>3</sup>Department Nasal Skull Base Surgery, Shenzhen Otolaryngology Research Institute, Shenzhen Longgang ENT Hospital)

Corresponding author: ZHANG Xiangmin, E-mail: xmzhang019@126.com

**Summary** Adenoid cystic carcinoma usually occurs in the salivary glands of the head and neck. It is a malignant tumor with a high degree of malignancy, resistance to radiotherapy and chemotherapy and poor prognosis. The clinical course of adenoid cystic carcinoma is slow and easy to be misdiagnosed. The main diagnosis and treatment means are individualized and precise treatment under the multi-disciplinary consultation mode, that is, surgical treatment and radiotherapy and chemotherapy. Adenoid cystic carcinoma is prone to relapse and hematologic metastasis, and the traditional radiotherapy and chemotherapy based therapies have not achieved satisfactory efficacy in the past three decades. How to detect, diagnose and treat early is an urgent task faced by clinicians.

**Key words** oropharyngeal; adenoid cystic carcinoma; misdiagnosis; skin flap to repair

### 1 病例报告

患者,男,57岁,2019年1月5日开始因反复出现放射至耳部的咽痛在我院咽喉科和耳科诊断为慢性扁桃体炎、慢性咽炎及慢性中耳炎门诊就诊20余次,内科治疗无效。2021年7月28日在我院咽喉科诊断为慢性扁桃体炎行双侧扁桃体切除术,病理示左侧扁桃体考虑腺样囊性癌,切缘见肿瘤。术后患者左耳颞部疼痛加剧,8月8日以“口咽腺样囊性癌不全术后”收入头颈科。

体检:咽部黏膜充血,双侧扁桃体窝见白膜覆盖,间接镜下鼻咽未见新生物,左扁桃体下极、咽侧壁、舌根见约4 cm×3 cm黏膜隆起,基底宽,质硬,边界欠清,表面欠光滑,无压痛,右侧颈部未触及明显肿大淋巴结,左颈Ⅱ、Ⅲ区可触及1.5 cm×1.0 cm淋巴结多枚,部分融合,质硬,较固定。颈部CT示双侧扁桃体切除术后双侧口咽侧壁软组织增厚,左侧为著,鼻咽腔气道变窄,部分闭塞;舌根部会厌谷可见软组织密度影,边界欠清;增强扫描显示舌根部及双侧腭扁桃体区可见条片状均匀强化,局部咽腔区可见片状低强化区。左侧咽后及咽旁区见多发软组织密度影,边界不清,形态不规则,增强扫描呈不均匀环形强化,左颈Ⅱ、Ⅲ区淋巴结肿大,包绕颈外动脉和颈内静脉(图1、2)。历次电子喉镜检查见图3。

<sup>1</sup>深圳市耳鼻咽喉研究所 深圳市龙岗区耳鼻咽喉医院头颈外科(广东深圳,518172)

<sup>2</sup>深圳市耳鼻咽喉研究所 深圳市龙岗区耳鼻咽喉医院影像科

<sup>3</sup>深圳市耳鼻咽喉研究所 深圳市龙岗区耳鼻咽喉医院鼻颅底外科

通信作者:张相民, E-mail: xmzhang019@126.com

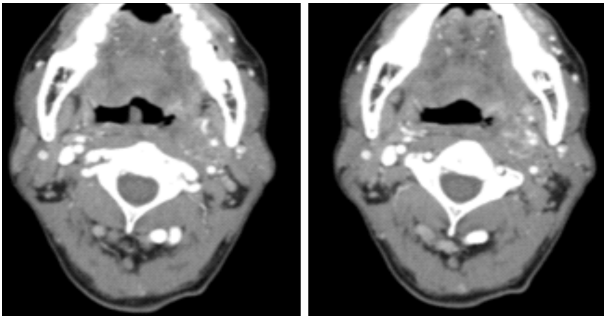


图 1 增强 CT 横断位

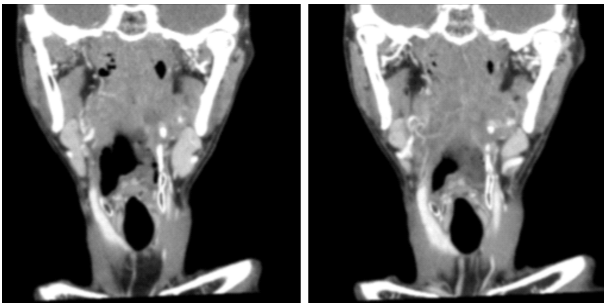
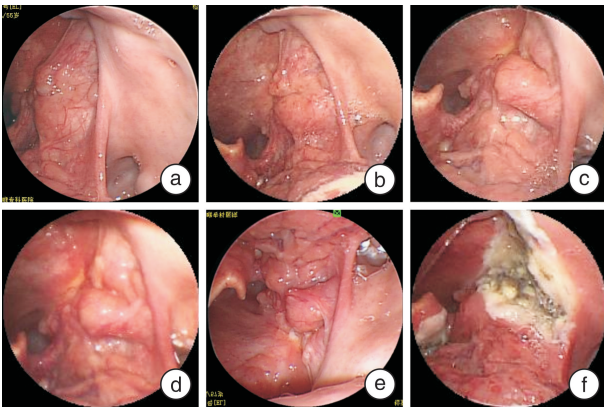


图 2 增强 CT 冠状位

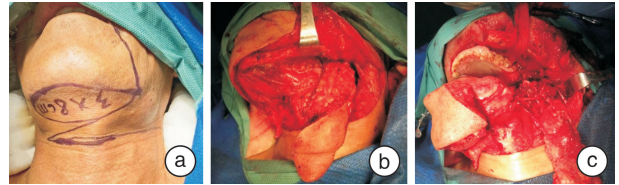


a:2019 年 5 月 21 日电子喉镜左咽侧壁;b:2020 年 3 月 15 日电子喉镜左咽侧壁;c:2021 年 1 月 19 日电子喉镜左咽侧壁;d:2021 年 3 月 2 日电子喉镜左咽侧壁;e:2021 年 7 月 14 日电子喉镜左咽侧壁;f:第 1 次手术后电子喉镜左咽侧壁。

图 3 历次内镜检查

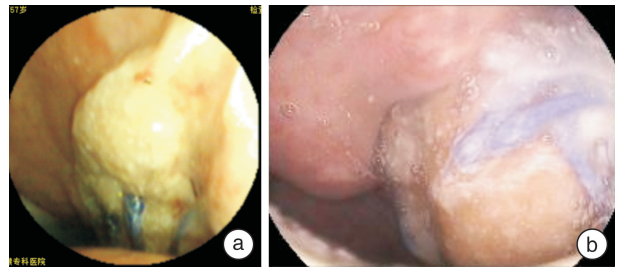
经多学科会诊 (multi-discipline team, MDT) 后决定行手术加放疗的综合治疗。因患者不接受游离皮瓣修复,根据患者年龄和身体状况,决定用颈下岛状瓣修复,8 月 12 日在全身麻醉下行左舌骨上淋巴结清扫、下颌骨切开坚强内固定、咽侧壁癌扩大切除、颈下岛状瓣及交叉瓣修复重建和气管切开术(图 4),给以营养、对症等治疗后痊愈出院(图 5,图 6)。术后病理示左咽部、颅底、舌根考虑腺样囊性癌,可见脉管、神经侵犯,肿瘤浸润横纹肌,淋巴结左颈 I B 区 0/4,左颈 II 区 1/18,左颈 III 区 1/25 见转移癌,转移灶最大径 4 mm。9 月 16

日予以放疗,6MV-X 线 VMAT 技术,95%PTV-tb 66 Gy/2 Gy/33 f,95% PTV 60.06 Gy/1.82 Gy/33 f,95%PGTVp 69.96 Gy/2.12G y/33 f,放疗后随访 3 个月(图 7),患者恢复良好,无残留,无局部复发及转移。



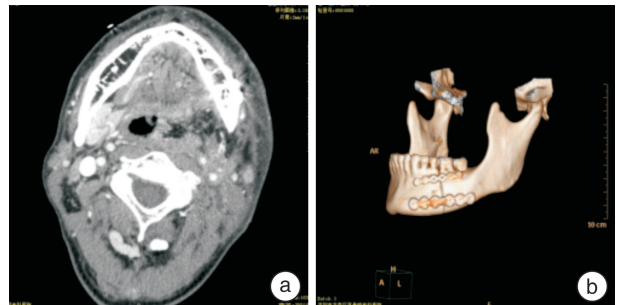
a:皮瓣设计;b:颈下岛状瓣制备;c:病灶切除。

图 4 颈下岛状瓣修复



a:术后 5 d 皮瓣;b:术后 15 d 皮瓣。

图 5 术后不同时间的皮瓣恢复情况



a:术后 15 d 增强 CT 横断位;b:术后 15 d 三维重建 CT。

图 6 术后 CT 检查



图 7 放疗后 1 个月的皮瓣恢复情况

## 2 讨论

头颈腺样囊性癌好发于颌下腺、舌下腺和腭部小涎腺<sup>[1-5]</sup>。肿瘤起病隐匿,早期肿瘤一般不大且无痛,生长缓慢,随着病情的进展,肿瘤渐进性增大,与周围组织分界不清,或与周围组织粘连、固定。肿瘤早期可沿神经扩散,造成相应神经功能障碍;常侵犯邻近骨组织或者破坏颅底骨质引起剧烈疼痛<sup>[2-4,6]</sup>。当肿瘤发生于小涎腺时,黏膜表面难于觉察异样,首发症状常常为肿瘤侵犯周围重要组织或沿神经扩散引起的疼痛,累及黏膜时,黏膜表面可见网状扩张的毛细血管,突破黏膜长出黏膜外罕见。腺样囊性癌发现时大部分较晚期,原发灶与口、鼻、眼及颅底毗邻,肿瘤又易沿神经侵袭,可引起周围多器官病损,给治疗带来困难,预后差<sup>[7-14]</sup>。

患者 2019 年 1 月 5 日首次就诊我院,门诊诊断为左侧扁桃体肿大,后反复以慢性扁桃体炎、急性咽炎、慢性咽炎、外耳道炎、耳神经痛、颞颌关节综合征门诊就诊 20 余次,治疗两年半后患者症状渐进性加重,疼痛难于忍受行扁桃体切除,术中发现左侧扁桃体区坚硬,扁桃体无边界,向上延伸到颅底,向下至舌根会厌谷,术中无法切除而停止手术,术后病理示扁桃体腺样囊性癌。该患者在 2 年的就诊时间内,多次行鼻咽喉镜和耳内镜检查,未做影像学检查,第 1 次手术后 CT 检查才发现咽侧壁颅底肿瘤,咽后和颈部淋巴结,颈部淋巴结包裹颈外动脉和颈内静脉。第 2 次入院经 MDT,拟口角斜形联合颌下切口下颌骨切开入路扩大切除肿瘤,股前外侧皮瓣修复;患者拒绝游离皮瓣后,综合其年龄和身体状况,行左舌骨上淋巴结清扫、下颌骨切开坚强内固定、咽侧壁癌扩大切除、颅底癌扩大切除、颌下岛状瓣及交叉瓣修复和气管切开术,术后 10 d 痊愈出院。术后放疗后随访 3 个月,疼痛消失,未见残留、复发及转移。

该患者在治疗的 2.5 年内,咽喉科、耳科和颌面外科医生均未考虑肿瘤,且均未行影像学检查;电子喉镜检查时未应用窄带成像;多次电子喉镜检查对比不仔细,未发现肿瘤进展;症状在多次治疗后未缓解甚至加重且未引起警惕;治疗中未请头颈外科医生会诊,且未申请门诊 MDT 是造成患者误诊的主要原因。因此,临床医生应该加强学习,不要仅限于本专业;在患者就诊的过程中,检查要全面;长期治疗无效要警惕肿瘤,必要时可以提交 MDT,以给患者提供最合理有效且精准的治疗方案<sup>[9,12,14]</sup>。

**利益冲突** 所有作者均声明不存在利益冲突

## 参考文献

[1] Suárez C, Barnes L, Silver CE, et al. Cervical lymph node metastasis in adenoid cystic carcinoma of oral cavity and oropharynx: A collective international re-

- view[J]. *Auris Nasus Larynx*, 2016, 43(5):477-484.
- [2] Wang Y, Hu J, Wang Y, et al. EGFR activation induced Snail-dependent EMT and myc-dependent PD-L1 in human salivary adenoid cystic carcinoma cells [J]. *Cell Cycle*, 2018, 17(12):1457-1470.
- [3] Karimi A, Parhiz A, Eslamiamirabadi N, et al. Adenoid cystic carcinoma of buccal mucosa; A report of two rare cases and review of literature[J]. *Clin Case Rep*, 2020, 9(1):23-30.
- [4] Ahlem B, Manel N, Nouha BA, et al. High grade transformation of adenoid cystic carcinoma in the palate: Case report with review of literature[J]. *Int J Surg Case Rep*, 2021, 78:162-166.
- [5] Lahjaouj M, Berrada O, Rayhane A, et al. Advanced adenoid cystic carcinoma of maxillary sinus; Rare case report and review of literature[J]. *Int J Surg Case Rep*, 2021, 80:105622.
- [6] Liu X, Yang X, Zhan C, et al. Perineural Invasion in Adenoid Cystic Carcinoma of the Salivary Glands; Where We Are and Where We Need to Go[J]. *Front Oncol*, 2020, 10:1493.
- [7] Belulescu IC, Margaritescu C, Dumitrescu CI, et al. Adenoid Cystic Carcinoma of Salivary Gland; A Ten-Year Single Institute Experience[J]. *Curr Health Sci J*, 2020, 46(1):56-65.
- [8] Dou S, Li R, He N, et al. The Immune Landscape of Chinese Head and Neck Adenoid Cystic Carcinoma and Clinical Implication[J]. *Front Immunol*, 2021, 12:618367.
- [9] Yang J, Zhou C, Wang Y, et al. Multimodal therapy in the management of lacrimal gland adenoid cystic carcinoma[J]. *BMC Ophthalmol*, 2019, 19(1):125.
- [10] Sahara S, Herzog AE, Nör JE. Systemic therapies for salivary gland adenoid cystic carcinoma [J]. *Am J Cancer Res*, 2021, 11(9):4092-4110.
- [11] Tasoulas J, Divaris K, Theocharis S, et al. Impact of Tumor Site and Adjuvant Radiotherapy on Survival of Patients with Adenoid Cystic Carcinoma: A SEER Database Analysis[J]. *Cancers (Basel)*, 2021, 13(4):589.
- [12] Dillon PM, Chakraborty S, Moskaluk CA, et al. Adenoid cystic carcinoma: A review of recent advances, molecular targets, and clinical trials[J]. *Head Neck*, 2016, 38(4):620-627.
- [13] Ran J, Qu G, Chen X, et al. Clinical features, treatment and outcomes in patients with tracheal adenoid cystic carcinoma: a systematic literature review[J]. *Radiat Oncol*, 2021, 16(1):38.
- [14] Cantù G. Adenoid cystic carcinoma. An indolent but aggressive tumour. Part B: treatment and prognosis [J]. *Acta Otorhinolaryngol Ital*, 2021, 41(4):296-307.

(收稿日期:2022-02-20)