

Dil Kökü Adenoid Kistik Karsinomu: Olgu Sunumu

Fatih Özdoğan¹, Murat Özcan¹, Adin Selçuk¹, Talih Özdaş¹, Selim Ereku²,
Hüseyin Dere¹

¹Ankara Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi, 4. Kulak Burun Boğaz Kliniği, Ankara

²Ankara Özel Ereku Patoloji Laboratuvarı, Ankara

ÖZET

Dil kökü adenoid kistik karsinomu: Olgu sunumu

Adenoid kistik karsinomlar, major veya minör tükürük bezlerinden köken alan neoplazmlardır. Yavaş büyüyen, lokal invaziv ve uzak metastaz potansiyeli olan malign neoplazmlardır. Adenoid kistik karsinom, minör tükürük bezi tümörlerinin %29'unu teşkil ederken en sık görüldüğü lokalizasyon sert damaktır. Dilde ise adenoid kistik karsinom nadir görülmektedir. Baş boyun bölgesi adenoid kistik karsinomlarında prognoz diğer epitel kökenli kanserlere göre daha iyidir. Bu çalışmada cerrahi ve kemoradyoterapi ile tedavi edilen dilde adenoid kistik karsinom olgusu, klinik, patolojik ve tedavi yaklaşımlarıyla literatür bilgileri ışığında sunulmuştur.

Anahtar kelimeler: Dil kökü, karsinom, adenoid kistik

ABSTRACT

Adenoid cystic carcinoma of the base of the tongue: case report

Adenoid cystic carcinomas are the malignant neoplasms that are originating from major and minor salivary glands. They are slowly growing, locally invasive malignant tumors and they potentially cause distant metastasis. They represent approximately 29% of all minor salivary gland tumors and the most common intraoral site is hard palate. Adenoid cystic carcinomas of tongue are rarely seen. Prognosis of adenoid cystic carcinomas of head and neck is better than the epithelial neoplasms of head and neck. We present a case of adenoid cystic carcinoma of the tongue which was treated with surgery and chemoradiotherapy, and brief literature review on its clinical, pathological and therapeutic aspects.

Key words: Tongue base, carcinoma, adenoid cystic

Bakırköy Tıp Dergisi 2012;8:187-190

GİRİŞ

Oral kavite ve orofarenks, baş boyun bölgesinde yassı hücreli kanserlerin sık görüldüğü lokalizasyonlar arasında yer almaktadır. Oral kavite kanserlerinden de en sık dil kanserleri görülmektedir. Bunların %94'ünü yassı hücreli kanserler oluşturur. Adenoid kistik karsinom (AKK) ise, dünya sağlık örgütü (WHO) tarafından çeşitli morfolojik konfigürasyonlarda kribriform, tubuler ve solid paternlerde epitelial ve myoepitelial hücreleri bulduran, genellikle fatal olarak seyreden bazaloid bir tümör türü olarak tarif edilmiştir (1). Baş boyun tüm malign neoplazmlarının

%1-2'sini ve tüm tükürük bezi tümörlerinin %10-15'ini teşkil eder. Minör tükürük bezi kaynaklı AKK'ler tüm ACC'lerin %31'ini teşkil eder. Minör tükürük bezi kaynaklı AKK'lerin %4.4'ü dilde görülmektedir (2). En sık görülen histolojik alt tip kribriform tiptir (3). Dil kökünde kribriform tip ACC tespit edilen vaka literatür eşliğinde sunuldu.

OLGU SUNUMU

48 yaşında bayan hasta dilde 6 aydır mevcut olan ağrılı şişlik şikayeti ile başvurdu. Yapılan muayenesinde dil ön ucu 4 cm posteriorundan başlayan, anteromedialde orta hatta uzanan ve dil kökünde yerleşim gösteren, mukozal lezyon oluşturmeyen 4x4 cm ebadında palpasyonla sert kitle tespit edildi (Şekil1). Boyunda palpe edilebilir lenfadenopati saptanmadı. Hastanın çekilen maksillofasial bilgisayarlı tomografisinde (BT) dil kökünde dil sol yarısına ve orta hatta uzanan, orofarenks hava sütununu daraltan kitle izlendi. Yapılan manyetik rezonans

Yazışma adresi / Address reprint requests to: Dr. Fatih Özdoğan
Ankara Numune EAH, 4. KBB Kliniği, Ankara

Telefon / Phone: +90-505-289-7781

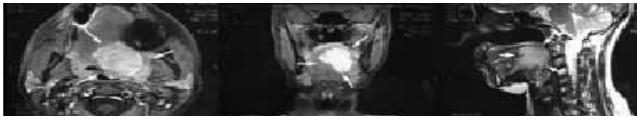
Elektronik posta adresi / E-mail address: ozdogan.fatih@gmail.com

Geliş tarihi / Date of receipt: 08 Ocak 2011 / January 08, 2011

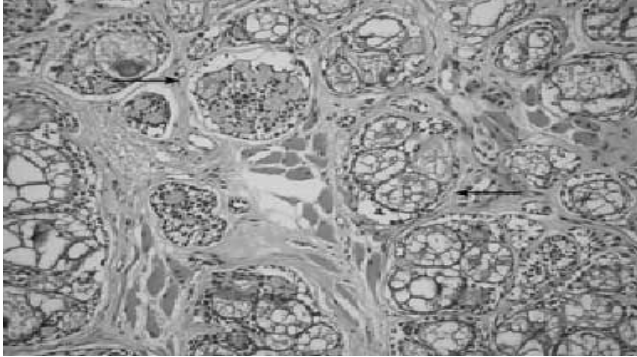
Kabul tarihi / Date of acceptance: 29 Mart 2011 / March 29, 2011



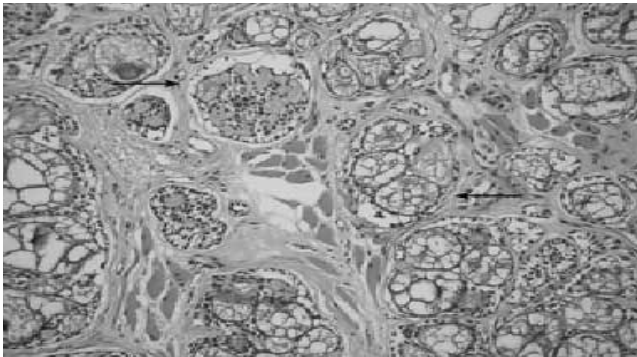
Şekil 1: Dil sol lateralde, dil ön ucu 4 cm posteriorundan başlanarak anteromedialde orta hatta uzanan, posteriorda dil köküne uzanan kitle oklarla gösterilmekte



Şekil 2: Manyetik rezonans görüntülemesinde (sırasıyla aksiyel, koronal ve sagittal kesitler) dil posterior kesimde yer alan, sublingual gland posterior kesim komşuluğunda, solda genioglossus kasına doğru uzanan, T1A sekanslarda hipointens, T2A sekanslarda hiperintens, lobule konturlu kitle oklarla gösterilmekte



Şekil 3: Çizgili kas hücreleri arasında irili ufaklı kümeler halinde kistik yapılar gösteren adenoid kistik karsinom odakları oklarla gösterilmekte. (H.E. 200 x)



Şekil 4: Sinir kılıfı (ok başı) etrafındaki perinöral invazyon gösteren adenoid kistik karsinom odakları görülmekte (oklar). (H.E 400 x)

görüntülemesinde (MR) dil posterior kesimde yer alan, sublingual gland posterior kesim komşuluğunda, solda genioglossus kasına doğru uzanan, T1A sekanslarda hipointens, T2A sekanslarda hiperintens lobule konturlu kitle izlendi (Şekil 2). Hastadan alınan ince iğne aspirasyon biyopsi sonucu “adenoid kistik karsinom şüphesi” olarak rapor edildi. Takiben hastaya genel anestezi altında dil kökünden tümör eksizyonu operasyonu uygulandı. Tümörün dil dorsal yüz mukozasına yaklaştığı kısımlarda da tümör mukoza ile birlikte eksize edildi.

Spesimenin yapılan histopatolojik incelemesi “kribri-form tip adenoid kistik karsinom” olarak rapor edildi (Şekil 3, 4). Cerrahi sınır pozitif olduğu raporda belirtildi.

Hastaya tekrar operasyon önerildi. Hastanın operasyonu kabul etmemesi üzerine radyasyon onkolojisi ve medikal onkoloji kliniklerine konsülte edildi ve hastaya 6600 cGy doz IMRT ve eş zamanlı 3 aylık haftalık cisplatin 40 mg/m² kemoterapi uygulandı. Postoperatif 15 aylık takiplerinde hastada lokal rekürrens ve uzak metastaz saptanmadı. Hastadan alınan verilerin yayınlanabilmesi için hasta bilgilendirilerek onamı alındı. Hastanın takibine devam edilmektedir.

TARTIŞMA

Adenoid kistik karsinom (AKK) ilk olarak 1850’lerde tanımlanan bir neoplazidir (4). Dil kökünde, adenoid kistik karsinom nadir görülen neoplazmlardandır. Adenoid kistik karsinomlar, major veya minör tükrük bezlerinden köken alırlar. Yavaş büyüyen, lokal invaziv ve uzak metastaz potansiyeli olan, özellikle karaciğer ve kemige metastaz yapan malign karakterli neoplazmlardır (4).

Ortiz ve arkadaşları yaptıkları çalışmada 68 baş boyun ACC’li vakanın 8’ini (%11.8) dil yerleşimli ve bunların %75’ini dil kökü yerleşimli olarak rapor etmişlerdir (3).

AKK’ların tipik klinik özellikleri; yavaş büyümeleri, lokal rekürrens göstermeleri, perinöral invazyon yapımları ve uzak metastazın sık görülmesidir (5). Özellikle kadınlarda, 5 ve 6. dekadlarda daha sık görülmektedir (6). Bu hastalarda görülen semptomlar çoğunlukla dilde ağrılı ya da ağrısız kitle iken nadiren fasiyal paralizi gibi nörolojik fonksiyon bozuklukları görülmektedir (7). Dil kökünde yerleşen tümörler mobil dil tümörlerine göre dil mobilitesini daha az etkilediği için tanı daha geç koyulmaktadır (3). Bizim olgumuz 48 yaşında bayandı ve 6 aydır dil kökünde ağrılı kitle şikayeti mevcuttu.

Ayrıncı tanıda pleomorfik adenom ve adenokarsinom

en başta düşünülmesi gereken patolojilerdir (8). Bu tümörlerin radyolojik bulguları nonspesifiktir. Malign minör tükrük bezi tümörlerinde BT ve MR birbirini tamamlayıcı rol oynar. Perinöral invazyon ve tümörün yumuşak dokulardaki uzanımı en iyi MR görüntüleme ile sağlanırken kemik tutulumu en iyi BT ile gösterilir. (9)

Histopatolojik olarak 3 tipi mevcuttur: solid, tübüler ve kribriform (10). En sık görülen histolojik alt tip kribriform tiptir. 10 yıllık sağkalım, solid tipte %34, kribriform'da %76 ve tübüler tipte % 100'dür. (3). Çoğu yazar solid histolojik subtipin prognozda en önemli belirleyici faktör olduğunu rapor etmişlerdir (11). Bizim olgumuz da histolojik subtip kribriform olarak tespit edildi. AKK'lar perinöral invazyon sık görülen tümörlerdir (9). Bizim vakamızda da perinöral invazyon tespit edildi (Şekil 4).

Dil kökü AKK'larında primer tedavi modalitesi cerrahidir (12). Diğer malign neoplazmlarla karşılaştırıldığında AKK'ların cerrahi olarak tamamen çıkarılmaları zordur ve bu vakalarda sıklıkla cerrahi sınır pozitifdir (13). Dil kökündeki büyük tümörlerde geniş emniyet marjı bırakıldığı takdirde, yutma fonksiyonlarında bozulma riski mevcuttur. Bu nedenle primer kapatma yerine flep rekonstrüksiyonu ihtiyacı olabilir. Kitle eksizyonu yapıp frozen veya kalıcı kesit sonucuna göre ek rezeksiyon ihtiyacına karar verilebilir. Bizde hastamıza kitle eksizyonu operasyonu uyguladık. Bizim hastamızda da histopatolojik inceleme sonucunda pozitif cerrahi sınır tespit edildi. Hastaya ikinci bir cerrahi önerildi ancak hasta kabul etmedi.

AKK'larda postoperatif adjuvan radyoterapi (RT) hala tartışmalıdır. Bir kısım yazar ileri evre ve cerrahi sınır pozitif hastalarda postoperatif radyoterapi önerirken bir kısım yazar ise postoperatif radyoterapi ile 5 ve 10 yıllık lokal kontrol oranlarının yüksek olduğunu ve tüm vaka-

larda postoperatif radyoterapi seçeneğinin tercih etmektedirler (14,15). Spiro ve arkadaşları postoperatif radyoterapi alan hastaların sağkalımının arttığını göstermişlerdir (4). Bizim hastamızda da histopatolojik inceleme sonucunda pozitif cerrahi sınır tespit edildi. Takiben hastaya tekrar operasyon önerildi ancak kabul etmemesi üzerine hastaya kemoradyoterapi verildi.

Haddad ve arkadaşları yaptığı çalışmada, daha önce herhangi bir tedavi almayan, ileri evre baş-boyun AKK'lı 5 hastalık seride tüm hastalara primer kemoradyoterapi uygulanmış (15). Kemoterapötik olarak karboplatinum ve paklitaksel verilmiş. İzlem süresince tüm hastalarda lokal kontrol sağlanmış ancak 1 hastada 7 ay sonra uzak metastaz gelişmiş. Bu çalışmaya göre de ileri evre unrezektabl tümörü olan hastalarda primer kemoradyoterapi (carboplatinum/paclitaxel) cerrahi veya RT'ye alternatif olabilir.

Tümörün lokal agresif olması, yüksek lokal rekürrensi ve geç uzak metastaz yapması nedeni ile başlangıç tedavisinden 10-20 yıl sonra bile fatal seyrebilmektedir. Bu yüzden bu tümörlerde uzun süre takip önerilmektedir (14).

Cruz Perez ve arkadaşları yaptığı çalışmada, baş ve boyun bölgesi AKK'larında, 5 ve 10 yıllık sağkalımı sırasıyla % 56.5 ve %32.5 olarak belirtirken, Ortiz ve arkadaşları ise yaptığı çalışmada 10 yıllık sağkalımı %42 olarak rapor etmişlerdir (3,16). Bizim olgumuzun 15. ay kontrollerinde lokal kontrol sağlanmış ve uzak metastaz saptanmamıştır. Hastanın takipleri devam etmektedir.

Sonuç olarak adenoid kistik karsinomlar baş ve boyun bölgesinde nadir görülen tükrük bezi kökenli tümörlerdir. Dil kökünde nadiren yerleşim gösterirler ve dil kökü yerleşimli kitlelerde adenoid kistik karsinom ayırıcı tanıda her zaman düşünülmelidirler. Geç uzak metastaz yapabilecekleri unutulmamalı ve uzun süreli takip edilmelidirler.

KAYNAKLAR

1. El-Naggar AK, Huvos AG. Adenoid cystic carcinoma. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D (Eds). World Health Organization classification of tumors: pathology and genetics of head and neck tumors. Lyon: IARC Press; 2005.
2. Soares EC, Carreiro Filho FP, Costa FW, Vieira AC, Alves AP. Adenoid cystic carcinoma of the tongue: case report and literature review. Med Oral Patol Oral Cir Bucal 2008; 13: 475-478.
3. Luna-Ortiz K, Carmona-Luna T, Cano-Valdez AM, Mosqueda-Taylor A, Herrera-Gómez A, Villavicencio-Valencia V. Adenoid cystic carcinoma of the tongue – clinicopathological study and survival analysis. Head Neck Oncol 2009;1:15.
4. Spiro RH, Huvos AG, Strong EW. Adenoid cystic carcinoma of salivary origin: A clinicopathologic study of 242 cases. Am J Surg 1974; 128: 512-520.
5. Kowalski PJ, Paulino AF. Perineural invasion in adenoid cystic carcinoma: its causation/promotion by brain derived neurotrophic factor. Hum Pathol 2002; 33: 933-936.
6. Waldron CA, El-Mofty SK, Gnepp DR. Tumors of the intraoral minor salivary glands: a demographic and histologic study of 426 cases. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 1988; 66: 323-333.
7. Gomes DR, Hoppe BS, Wolden SL, et al. Outcomes and prognostic variables in adenoid cystic carcinoma of the head and neck: a recent experience Int J Radiat Oncol Biol Phys 2008; 70: 1365-1372.
8. Ustündağ E, Iseri M, Aydın O, Dal H, Almaç A, Paksoy N. Adenoid cystic carcinoma of the tongue. J Laryngol Otol 2000; 114: 477-480.
9. Peter MS, Hugh DC (Eds). Head and neck imaging, 4.ed, Mosby; St. Louis Missouri 2003; p. 1496-1497.

10. Andersen LJ, Therkildsen MH, Ockelmann HH, Bentzen JD, Schiodt T, Hansen HS. Malignant epithelial tumor in the minor salivary glands, the submandibular gland, and the sublingual gland. Prognosis factors and treatment results. *Cancer* 1991; 68: 2431-2437.
11. Bianchi B, Copelli C, Cocchi R, Ferrari S, Pederneschi N, Sesenna E. Adenoid cystic carcinoma of intraoral minor salivary glands, *Oral Oncol* 2008; 44: 1026-1031.
12. Carrasco Ortiz D, Aldape Barrios B. Adenoid cystic carcinoma of the dorsum of the tongue: presentation of a case. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2006; 11: E417-420.
13. Silverman DA, Carlson TP, Khuntia D, Bergstrom RT, Saxton J, Esclamado RM. Role for postoperative radiation therapy in adenoid cystic carcinoma of the head and neck. *Laryngoscope* 2004; 114: 1194-1199.
14. Mendenhall WM, Morris CG, Amdur RJ, Werning JW, Hinerman RW, Villaret DB. Radiotherapy alone or combined with surgery for adenoid cystic carcinoma of the head and neck. *Head Neck* 2004; 26: 154-162.
15. Haddad RI, Posner MR, Busse PM, et al. Chemoradiotherapy for adenoid cystic carcinoma preliminary results of an organ sparing approach. *Am J Clin Oncol* 2006; 29: 153-157.
16. da Cruz Perez DE, de Abreu Alves F, Nobuko Nishimoto I, de Almeida OP, Kowalski LP. Prognostic factors in head and neck adenoid cystic carcinoma. *Oral Oncol* 2006; 42: 139-146.