

正气管腺样囊性癌 16 例临床分析

王 珍,梁乃新,陈兴明,王 剑,陈晓巍,李五一
(中国医学科学院北京协和医学院北京协和医院,北京 100730)

摘 要:[目的] 探讨正气管腺样囊性癌的临床特点、治疗方法及预后。[方法] 回顾性分析我院自 1998 年 9 月至 2011 年 6 月收治的 16 例正气管腺样囊性癌患者的临床资料,7 例行气管局部切除,8 例行气管袖状切除+端端吻合术,1 例行气管下段切除+隆突重建术。Kaplan-Meier 法计算生存率。[结果] 正气管腺样囊性癌的 5 年、10 年生存率分别为 56.5%和 11.3%。切缘阳性率为 68.8%(11/16),切缘阳性与否对于生存的影响无统计学差异($\chi^2=0.740, P=0.390$)。术后放疗与否对于生存的影响也无统计学差异($\chi^2=0.063, P=0.801$)。[结论] 气管腺样囊性临床少见,手术切除是首选的治疗方法,有较高的切缘阳性率。
关键词:气管肿瘤;腺样囊性癌;治疗;预后
中图分类号:R734.1 **文献标识码:**A **文章编号:**1004-0242(2013)04-0288-03

Clinical Analysis of 16 Patients with Adenoid Cystic Carcinoma of the Trachea

WANG Zhen, LIANG Nai-xin, CHEN Xing-ming, et al.

(Peking Union Medical College Hospital, Chinese Academy of Medical Sciences & Peking Union Medical College, Beijing 100730, China)

Abstract:[Purpose] To investigate the clinical features, treatment and prognosis for adenoid cystic carcinoma of the trachea. [Methods] The clinical data of 16 cases with adenoid cystic carcinoma of the trachea admitted in our hospital from September 1998 to June 2011 were analyzed retrospectively. Seven patients underwent partial tracheal wall resection; 8 sleeve resection of trachea; and 1 carina resection with tracheal carina reconstruction. The survival rates were analyzed by Kaplan-Meier. [Results] The 5-year and 10-year survival rates were 56.5% and 63.6% respectively. Positive margin was found in 68.8% (11/16) of patients. Positive margin did not significantly correlated to survival rate ($\chi^2=0.740, P=0.39$). Post-surgical radiation therapy showed no significant relationship with survival rate ($\chi^2=0.063, P=0.801$). [Conclusion] Adenoid cystic carcinoma is a rare disease. Surgical resection is the most effective treatment, with a higher risk of positive surgical margins.

Key words: tracheal neoplasm; adenoid cystic carcinoma; therapy; prognosis

腺样囊性癌是一类起源于腺上皮的低度恶性肿瘤,约占头颈部肿瘤的 10%^[1]。原发于正气管的腺样囊性癌临床罕见。1998 年 9 月至 2011 年 6 月就诊于北京协和医院且临床资料完整者 16 例,现对其临床资料进行总结,以研究正气管腺样囊性癌的临床特点,指导外科治疗。

1 资料与方法

1.1 临床资料

本组患者共 16 例,男性 6 例,女性 10 例;年龄

24~69 岁,平均年龄 45.2 岁。起病初期症状为咳嗽、喘憋。确诊前病史 1~60 个月,平均 10.4 个月。6 例曾被误诊,其中 4 例误诊为支气管炎,2 例误诊为支气管哮喘。

16 例患者术前均行纤维气管镜及 CT 检查,可见气管内占位,其中 12 例肿瘤位于颈段气管,4 例位于胸廓入口水平以下(Figure 1)。

1.2 治疗方法

16 例患者中,7 例行局部切除,8 例行气管袖状切除+端端吻合术,行袖状切除者中有 2 例行肺门松解术,1 例行气管下段切除+隆突重建术。术中切除气管长度 1~6cm。1 例患者术后出现气管狭窄,行支架治疗。术后病理:5 例为手术切缘阴性,11 例为

收稿日期:2012-10-24

通讯作者:李五一, E-mail: liwuyi@sina.com

切缘阳性或肿瘤肉眼残留。1 例伴有上纵隔淋巴结转移。8 例患者行术后放疗, 放疗剂量 50~60Gy。

1.3 随访

16 例患者术后随访至 2012 年 12 月, 随访时间 11~121 个月, 平均随访时间 58.1 个月。有 10 例患者死亡, 其中 5 例死于局部复发, 3 例死于肺转移, 2 例因其他疾病死亡。

1.4 统计学处理

数据分析采用 SPSS 19.0 统计软件, Kaplan-Meier 法计算生存率, Log-rank χ^2 检验比较各种因素对于预后的影响, $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

死亡 10 例, 死亡率 62.5% (10/16), 生存时间为 11~121 个月。患者生存曲线(Figure 2)示 5 年、10 年生存率分别为 56.5% 和 11.3%。

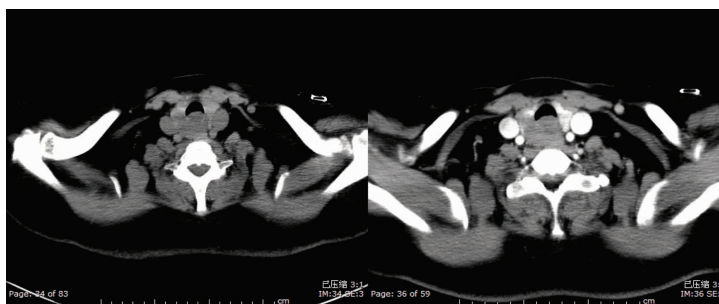
5 例手术切缘阴性, 11 例切缘阳性或肿瘤肉眼残留, 切缘阳性率为 68.8% (11/16), 两组死亡率分别为 60.0% (3/5) 和 63.6% (7/11), 差异无统计学意义 ($\chi^2 = 0.740, P = 0.390$) (Figure 3)。

9 例仅行手术治疗, 7 例手术加放疗, 两组患者死亡率分别为 66.7% (6/9) 和 57.1% (4/7), 两组数据无统计学差异 ($\chi^2 = 0.063, P = 0.801$)。

3 讨论

原发性正气管肿瘤临床罕见, 肿瘤起源于正气管黏膜下的腺体。文献报道, 腺样囊性癌是最常见的正气管恶性肿瘤之一, 约占全部正气管肿瘤的 40%^[2]。

正气管腺样囊性癌起病隐匿, 患者常出现咳嗽、憋气、咯血等非特异症状, 临床上易误诊为支气管炎、哮喘等疾病, 自起病至确诊往往需要数月至数年时间。本研究中, 患者自起病到确诊平均 10.4 个月。因此, 当临床上遇到相关症状, 病史较长, 内科治疗无效的患者, 需要警惕正气管腺样囊性癌的可能, 及时行纤维气管镜和 CT 检查。



Soft tissue mass about 2.5cm×3cm in the tracheal upper back wall.
Light enhancement observed, involving the right lobe of thyroid.

Figure 1 Non-contrast and enhanced CT scan of neck and chest

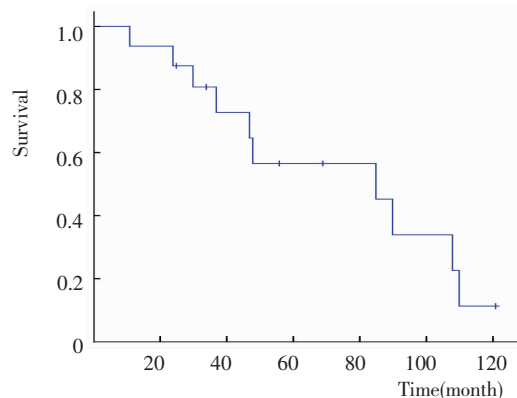


Figure 2 Survival curve of adenoid cystic carcinoma

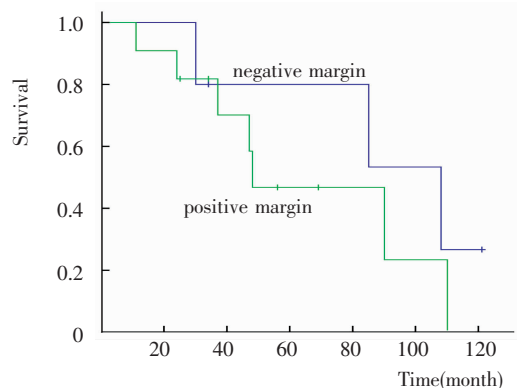


Figure 3 Survival curve of negative and positive margin group

手术切除是正气管腺样囊性癌的首选治疗方法。气管中段的肿瘤应首选气管袖状切除、端端吻合的术式。气管吻合时必须保证吻合口张力不能太大, 否则易发生吻合口瘘。气管切除的最大范围可达 4~6cm^[3-6], 或最大长度达气管总长度的 50%^[7]。必要时可松解喉或游离肺门。本研究中切除气管的

最大长度为6cm。如果肿瘤侵犯环状软骨以上水平,往往需要行全喉切除。如果肿瘤靠近隆突或侵犯支气管,同时切除隆突或肺叶,同期行隆突重建。腺样囊性癌手术复杂,风险较高,围手术期死亡率达13.3%^[2]。术后常见的并发症为气管狭窄,可以通过放置气管内支架,也可以放置硅胶T管行扩张治疗。一部分正气管腺样囊性癌患者可以经口插管进行全麻,当肿物阻塞气管造成插管困难,可以行气管切开。当肿物位置过低,气管切开困难时可以行体外循环。

腺样囊性癌肿瘤沿神经生长,手术易残留,术后容易局部复发。文献报道肿瘤切缘阳性率达60%^[8]。本研究中,正气管腺样囊性癌的手术切缘阳性率为68.8%,与文献报道相似。而在我们的研究中,手术切缘阳性组与阴性组的5年生存率、10年生存率无显著性差异,这可能与肿瘤远处转移率较高相关。Gaissert等^[9,10]研究结果发现,正气管腺样囊性癌手术切缘阳性组与阴性组患者的5年生存率、10年生存率有显著性差异。手术切缘对于患者生存期的影响有待进一步研究。由于腺样囊性癌肿瘤细胞易沿神经生长,肿瘤的实际边界往往超出肉眼所见的肿瘤范围,因此正气管腺样囊性癌的手术应尽可能达到手术切缘阴性。即使在手术中,肿瘤达到了肉眼完整切除并且保留了1~2cm的安全边界,肿瘤细胞仍然可能残留,因此需要在术中將切缘送冰冻病理,以冰冻结果阴性为根治切除的标准,以保证无肿瘤细胞的残留。但是,根据冰冻切缘的结果扩大手术范围时,如果正气管切除的长度>6cm,就有可能失去气管吻合的机会。当手术已经最大范围地切除了气管,而切缘仍为阳性,外科医生是选择继续扩大切除还是直接吻合气管,行姑息切除?这将是摆在外科医生面前的一项艰难选择。如果气管切除范围较大,无法直接吻合,可以采用人工气管、带蒂肌骨膜瓣等不同方法进行修复^[8,11]。但是上述修复方法的长期效果还需进一步研究论证。

腺样囊性癌对放疗敏感。目前,对于无法切除的肿瘤或者切缘阳性者进行放射治疗已经成为标准的治疗方法,一般推荐剂量为60~70Gy^[12-14]。在本研究中,手术加放疗组的死亡率低于单纯手术组,但两者之间无统计学差异。

尽管腺样囊性癌恶性程度较低,但易发生血行转移,不易发生淋巴结转移。最常见的转移部位为

肺,也可转移到脑、骨、肝等部位^[11],预后欠佳。文献报道正气管腺样囊性癌术后5年、10年生存率分别为52%和29%,非手术治疗组5年、10年生存率分别为33%和10%,因此手术切除应为正气管腺样囊性癌的首选治疗方法。

参考文献:

- [1] Khan AJ, DiGiovanni MP, Ross DA, et al. Adenoid cystic carcinoma: a retrospective clinical review[J]. *Int J Cancer*, 2001, 96(3):149-158.
- [2] Grillo HC, Mathisen DJ. Primary tracheal tumors: treatment and results[J]. *Ann Thorac Surg*, 1990, 49(1):69-77.
- [3] Li ZJ, Tang PZ, Xu ZG. Experience of diagnosis and treatment for primary cervical tracheal tumors[J]. *Chin J Otorhinolaryngol Head Neck Surg*, 2006, 41(3):208-210. [李正江, 唐平章, 徐震纲. 颈段气管肿瘤的诊治经验[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2006, 41(3):208-210.]
- [4] Cheng GY, Zhang RG, Zhang DC, et al. Clinical analysis of surgical treatment of primary tracheal tumors[J]. *Chin J Surg*, 2003, 41(11):823-826. [程贵余, 张汝刚, 张德超, 等. 原发性气管肿瘤的外科治疗[J]. 中华外科杂志, 2003, 41(11):823-826.]
- [5] Maziak DE, Todd TK, Keshavjee SH, et al. Adenoid cystic carcinoma of the airway: thirty-two-year experience[J]. *J Thorac Cardiovasc Surg*, 1996, 112(6):1522-1531.
- [6] Cao L, Ren H. Surgical treatment of primary tumors of trachea[J]. *Med J Chin PAPF*, 2012, 23(3):221-226. [曹磊, 任华. 原发性气管肿瘤的外科治疗[J]. 武警医学, 2012, 23(3):221-226.]
- [7] Honings J, Caissert HA, van der Heijden HF, et al. Clinical aspects and treatment of primary tracheal malignancies[J]. *Acta Otolaryngol*, 2010, 130(7):763-772.
- [8] Deng Y, Chu T, Tang H, et al. Clinical application of cervical trachea sleeve-resection[J]. *Chin J Otorhinolaryngol-Skull Base Surg*, 2005, 11(5):330-334. [邓毅, 初婷, 唐辉, 等. 颈段气管袖状切除的临床应用[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2005, 11(5):330-334.]
- [9] Gaissert HA, Grillo HC, Shadmehr MB, et al. Long-term survival after resection of primary adenoid cystic and squamous cell carcinoma of the trachea and carina[J]. *Ann Thorac Surg*, 2004, 78(6):1889-1897.
- [10] Honings J, Gaissert HA, Weinberg AC, et al. Prognostic value of pathologic characteristics and resection margins in tracheal adenoid cystic carcinoma[J]. *Eur J Cardiothorac Surg*, 2010, 37(6):1438-1444.
- [11] Suzuki T. What is the best management strategy for adenoid cystic carcinoma of the trachea? [J]. *Ann Thorac Cardiovasc Surg*, 2011, 17(6):535-538.
- [12] Calzada AP, Miller M, Lai CK, et al. Adenoid cystic carcinoma of the airway: a 30-year review at one institution[J]. *AM J Otolaryngol*, 2012, 33(2):226-231.
- [13] Lee JH, Jung EJ, Jeon K, et al. Treatment outcomes of patients with adenoid cystic carcinoma of the airway[J]. *Lung Cancer*, 2011, 72(2):244-249.
- [14] Bonner Millar LP, Stripp D, Cooper JD, et al. Definitive radiotherapy for unresected adenoid cystic carcinoma of trachea[J]. *Chest*, 2012, 141(5):1323-1326.