

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202322105

· 论著 ·

颞骨次全切除术治疗外耳道腺样囊性癌的疗效分析

刘强,薛玉斌,张文阳,王璞,严旭坤,夏寅

(首都医科大学附属北京天坛医院耳鼻咽喉科,北京 100070)

摘要: **目的** 探讨颞骨次全切除术在外耳道腺样囊性癌的临床应用效果。**方法** 回顾性分析2015—2019年收治的8例外耳道腺样囊性癌患者的临床资料,其中男2例,女6例;年龄33~76岁,平均年龄55.6岁。耳痛7例,外耳道肿块、耳溢液、听力下降各6例,面瘫1例;从最初出现症状到确诊平均为2.75年,5例曾被误诊,3例曾被误治手术;6例行颞骨次全切除+腮腺浅叶切除术,2例行颞骨次全切除+全腮腺切除术。**结果** 围手术期内1例患者出现局部切口感染,1例出现脑脊液漏。全部患者平均随访4.34年;6例患者无瘤存活;1例复发患者于我院二次手术后3年再次出现局部复发伴肺转移,接受放射治疗,目前带瘤生存;1例患者术后随访3.5年死于其他疾病。**结论** 外耳道腺样囊性癌早期症状不典型,容易误诊;确诊后应实施颞骨次全切除术以达到彻底切除肿瘤目的,术中应同时处理腮腺;术后放疗也是一种可选择的补充治疗手段。

关键词: 颞骨次全切除术;外耳道;腺样囊性癌

中图分类号:R764.9

Subtotal temporal bone resection for adenoid cystic carcinoma of the external auditory canal

LIU Qiang, XUE Yubin, ZHANG Wenyang, WANG Pu, YAN Xukun, XIA Yin

(Department of Otorhinolaryngology, Beijing Tiantan Hospital, Capital Medical University, Beijing 100070, China)

Abstract: **Objective** To investigate the clinical effect of subtotal temporal bone resection for adenoid cystic carcinoma of external auditory canal. **Methods** Clinical data of 8 patients with adenoid cystic carcinoma of external auditory canal treated in our department from 2015 to 2019 were retrospectively analyzed. Two males and 6 females were included, aged 33–76 years with an average age of 55.6. As for the clinical presentations, 7 cases had earache, 6 cases had mass in the external auditory canal, 6 had ear discharge, 6 had hearing loss, and one had facial paralysis. The mean time from the initial symptom to diagnosis was 2.75 years. Five cases had been misdiagnosed and 3 mistreated. Six patients underwent subtotal temporal bone resection and superficial parotid gland resection, and two received subtotal temporal bone resection and total parotid gland resection. **Results** During the perioperative period, local incision infection occurred in one case and cerebrospinal fluid leakage occurred in another. The mean follow-up was 4.34 years. Six patients survived without cancer. One recurrent patient developed local recurrence with pulmonary metastasis 3 years after the second operation in our hospital, and is now living with tumor after radiotherapy. One patient died of other disease 3.5 years after treatment. **Conclusions** The early symptoms of adenoid cystic carcinoma of external auditory canal are atypical and easy to be misdiagnosed. Subtotal temporal bone resection should be performed to achieve complete resection of the tumor with simultaneous management of parotid gland. Postoperative radiotherapy is also an alternative supplementing means for this tumor.

Keywords: Subtotal temporal bone resection; External auditory canal; Adenoid cystic carcinoma

外耳道恶性肿瘤较为少见,其发病率约为1/1 000 000,且多数为鳞状细胞癌^[1-3]。腺样囊性癌

是一种源发于涎腺的恶性肿瘤,在头颈部多发生于腮腺、硬腭、口腔、鼻腔、鼻咽等部位,而来源于外耳道的

第一作者简介:刘强,男,博士研究生,主治医师。

通信作者:夏寅,Email: xiayin3@163.com

腺样囊性癌较为少见,约占0.04/1 000 000^[4-5]。该肿瘤生长缓慢,早期症状并无特异性表现,因此在诊治过程中易被误诊。此外,因其发病率较低,国内外文献报道较少,目前尚无明确统一的治疗方案。本文通过回顾性分析诊治的8例外耳道腺样囊性癌患者临床资料,为其诊断、治疗以及建立外耳道腺样囊性癌的临床分期标准提供参考。

1 资料与方法

1.1 一般资料

回顾性分析我院2015—2019年收治的外耳道腺样囊性癌患者8例,其中男2例,女6例,年龄33~76岁,平均年龄55.6岁。患者中7例出现耳痛,6例伴有血性或水样耳溢液、传导性听力下降,1例伴有面瘫。所有患者从最初出现症状到确诊平均为2.75年,其中5例患者有误诊病史(具体误诊为外耳道肉芽1例,外耳道胆脂瘤2例,慢性化脓性中耳炎2例),3例患者曾于外院按良性疾病接受手术,病理回报恶性肿瘤后转入我院二次手术,1例患者外院手术后1年复发后于我院再次手术。所有患者术前均行颞骨CT、增强MRI以及腮腺(图1)、颈部淋巴结彩超检查,发现病变局限在外耳道6例,均出现外耳道骨质破坏,累及中耳1例,累及腮腺1例。根据Pittsburgh分期标准^[6-7],本组T2患者6例、T3患者2例,8例患者均无局部淋巴结转移及远处转移。具体临床资料见表1。

1.2 治疗方法

8例患者均行颞骨次全切除术,手术过程(病例8):沿耳道口肿物周围1 cm行切口切除受累耳甲腔软骨及皮肤,耳后C型切口向前掀起皮瓣充分暴露肿物外界,封闭外耳道口,在保留安全界限的前提下磨除肿物周围骨质,上至中颅底,下至乳突尖,后至乙状窦,前至颞下颌关节,充分暴露肿物前、后、上、下界,分离砧镫关节,切断鼓膜张肌,将锤骨连带鼓膜前翻,完整切除肿瘤,颞肌瓣填充术腔(图2)。2例患者行全腮腺切除术,其中1例术前彩超提示腮腺受累,另1例术前出现面瘫,两者术中均切除腮腺内面神经。6例患者行腮腺浅叶切除术。所有患者术前彩超提示颈部淋巴结未受累,故均未行淋巴结清扫。8例患者术后均接受了放射治疗。

2 结果

1例患者术后出现局部切口感染,予以加强换药及抗炎治疗后切口愈合良好。1例患者术后换药发现切口局部有清亮液体流出,怀疑脑脊液漏,予以加压包扎及甘露醇治疗,配合患者头高脚低位卧床后症状消失。全部患者随访2.3~7.0年,平均随访4.34年。1例患者外院手术后局部复发于我院二次手术后1年再次复发合并出现肺转移,后予以放疗,目前带瘤生存;1例患者术后随访3.5年时因其他疾病死亡;其他患者均在随访过程中,且为无瘤存活。病例8术后半年影像学检查见图3。

表1 8例外耳道腺样囊性癌患者临床资料

序号	性别	年龄(岁)	侧别	病程(年)	临床症状	误诊史	分期	手术方式	并发症	放疗	复发	随访时间(年)	随访结果
1	女	76	右	4.0	耳痛、外耳道肿块、听力下降	无	T3N0M0	颞骨次全切+腮腺切除	感染	有	无	3.5	死亡
2	女	33	右	1.5	耳痛、外耳道肿块、耳溢液	外耳道肉芽	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	无	2.3	无瘤存活
3	女	50	右	3.0	耳痛、耳溢液、听力下降	慢性化脓性中耳炎	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	无	7.0	无瘤存活
4	男	56	左	2.0	耳痛、外耳道肿块、耳溢液、眩晕	无	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	无	5.5	无瘤存活
5	女	40	右	2.0	外耳道肿块、耳溢液、听力下降	外耳道胆脂瘤	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	脑脊液漏	有	无	2.7	无瘤存活
6	男	67	左	4.0	耳痛、耳溢液、听力下降	慢性化脓性中耳炎	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	无	2.3	无瘤存活
7	女	57	左	2.5	耳痛、外耳道肿块、听力下降	外耳道胆脂瘤	T2N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	无	6.5	无瘤存活
8	女	66	右	3.0	耳痛、外耳道肿块、耳溢液、听力下降、面瘫	无	T3N0M0	颞骨次全切+腮腺浅叶切除	无	有	术后1年	4.9	带瘤存活

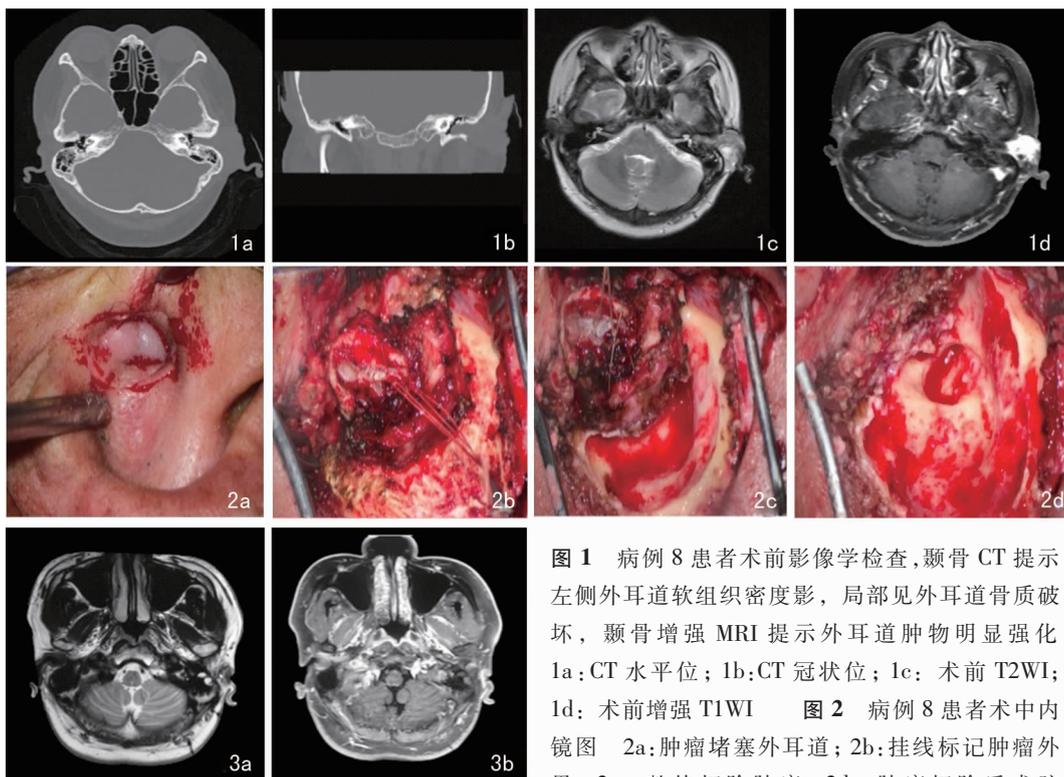


图1 病例8患者术前影像学检查,颞骨CT提示左侧外耳道软组织密度影,局部见外耳道骨质破坏,颞骨增强MRI提示外耳道肿物明显强化
1a:CT水平位;1b:CT冠状位;1c:术前T2WI;1d:术前增强T1WI
图2 病例8患者术中内镜图
2a:肿瘤堵塞外耳道;2b:挂线标记肿瘤外界;2c:整块切除肿瘤;2d:肿瘤切除术后腔

图3 病例8患者术后半年影像学检查 3a:术后T2WI;3b:术后增强T1WI

3 讨论

外耳道腺样囊性癌发病率较低,是一种低度恶性肿瘤,虽生长缓慢,但远期生存率并不高。既往文献报道该病多见于中老年患者,女性好发^[4,8,9],仅有1篇报道男性好发^[10]。本组患者发病年龄均大于30岁,男女比例为2:6,与多数文献报道相近^[3-5,8-9]。

从症状方面分析,外耳道腺样囊性癌早期症状多不典型,本组患者最常见的表现为耳痛(88%)及外耳道肿物(75%),这与既往文献报道相一致^[3-5]。其中,耳痛早期多为间歇性,后期加重可转为持续性剧烈耳痛,考虑与肿瘤侵犯神经或炎症局部反应有关^[9]。后肿物逐渐增大堵塞耳道可出现耳闷、听力下降,继发感染可引起耳溢液,因此常被误诊为外耳道炎、中耳炎。本组患者有5例以耳痛、耳溢液、耳部不适就诊后被误诊为炎症性疾病。此外,腺样囊性癌多呈“惰性”生长,病程较长。Pulec等^[11]曾于1963年报道外耳道腺样囊性癌从发现症状到就诊平均为6年。Dong等^[8]也曾报道其从最初出现症状到做出诊断平均为7.7年。本组患者最长为4.0年,因此对于出现血性耳溢液、耳痛的外耳道肿物患者应高度警惕腺样囊性癌的存在。

从术前辅助诊断方面来说,颞骨高分辨率CT

和增强MRI是早期诊断外耳道腺样囊性癌必备的影像学检查,前者有助于评估骨质受累情况,后者能够较好显示肿瘤对周围软组织的侵犯,两者结合有助于早期发现病变。此外,对于可疑患者进行活检也是避免误诊、漏诊的重要选择。

从治疗方面来说,外耳道腺样囊性癌对放、化疗敏感性较差,其治疗以手术为主^[12]。一般来说,多数学者认为对于肿瘤早期累及范围较局限者,可行颞骨外侧部切除术;对于侵及中耳或病变范围较广泛的晚期肿瘤,应行颞骨次全或全切除术,必要时切除下颌骨髁突^[13]。该肿瘤局部侵袭性强,易沿神经侵袭性生长,无包膜,且与周围组织边界不明显,局部切除容易复发^[14]。同时,其症状隐蔽性强,病程较长,实现早期切除并不容易。因此,笔者认为对于早期外耳道腺样囊性癌患者首次手术宜行颞骨次全切除术以实现广泛切除。需要强调的是,术者应摒弃耳科固化的“保功能”处理模式,严格遵循肿瘤手术原则,尽可能整块切除,同时保证切缘阴性。颞骨本身解剖复杂,毗邻颅底重要神经血管,手术除了切除受累软组织,还需尽可能磨除骨组织以保留出足够的安全界,因此对术者要求极高。本组患者有1例出现脑脊液漏,考虑与术中轮廓化中颅底局部清理肉芽有关。

目前对于外耳道腺样囊性癌如何处理腮腺亦存在一定争论。从解剖上来说,外耳道癌侵犯腮腺主要有两种途径:一种是通过 Santorinni 切迹、Huschke 孔以及骨与软骨交界处间隙直接侵犯,另一种是通过淋巴结转移^[15]。相关文献报道外耳道腺样囊性癌累及腮腺比例较高,戴春富等^[13]曾报道其中约35%的患者术前影像学检查提示腮腺未受累,但术后病理提示肿瘤累及腮腺。多数学者认为外耳道腺样囊性癌在处理颞骨的基础上同时应切除腮腺浅叶,甚至切除全部腮腺组织。但也有学者认为常规腮腺浅叶切除并不能提高患者的生存率,因此并不提倡切除腮腺。本组患者中有2例行全腮腺切除术,余病例行腮腺浅叶切除术。笔者认为腺样囊性癌患者处理腮腺是十分必要的。对于术前出现面瘫症状以及术前彩超提示腮腺受累的患者均应行全腮腺切除术,考虑肿瘤的嗜神经生长特性,术中应同时切除腮腺内面神经。而对于未累及腮腺且无面瘫的早期患者而言,术中至少切除腮腺浅叶。此外,淋巴结清扫在外耳道癌治疗中也存在争论。外中耳的淋巴多引流至咽后淋巴结及 I、II 区淋巴。据报道外耳道癌出现淋巴结转移的概率较低,约为 10% ~ 23%^[16],在腺样囊性癌中淋巴转移可能性更低,因此多数学者认为只有晚期 T3、T4 患者怀疑淋巴转移可行 I ~ III 区淋巴结清扫^[13]。

放疗是外耳道癌的辅助治疗方式,但腺样囊性癌对放疗敏感性差,因此仍存在一定争议。多数学者认为放疗能够杀死肿瘤的亚临床灶,增加手术的安全界,因此原则上除早期“局限表浅”的肿瘤可单纯行手术治疗外,其余均应行术后放疗,尤其对于 T3、T4 以及出现淋巴结转移、术中切缘阳性的病例^[12]。在本组病例中,所有患者均被常规建议行放射治疗。

外耳道腺样囊性癌早期症状不典型,诊断不易,多数患者病程较长且存在误诊病史,因此对于此类早期患者明确诊断后应尽快行颞骨次全切除术以实现彻底切除,同时术中处理腮腺,而术后放疗也是一种可选择的补充治疗手段。目前针对外耳道腺样囊性癌包括分期、治疗方面仍存在很多争论,未来应在多中心合作下进行前瞻性研究,以期制定临床诊疗指南提供更多参考。

参考文献:

- [1] Barrs DM. Temporal bone carcinoma[J]. *Otolaryngol Clin North Am*, 2001, 34(6): 1197-1218.
- [2] Kuhel WI, Hume CR, Selesnick SH. Cancer of the external audi-

tory canal and temporal bone[J]. *Otolaryngol Clin North Am*, 1996, 29(5): 827-852.

- [3] Ouaz K, Robier A, Lescanne E, et al. Cancer of the external auditory canal [J]. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*, 2013, 130(4):175-182.
- [4] Green RW, Megwalu UC. Adenoid cystic carcinoma of the external ear: a population based study[J]. *Am J Otolaryngol*, 2016, 37(4): 346-350.
- [5] Chen SL, Huang SF, Ho VW, et al. Clinical characteristics and treatment outcome of adenoid cystic carcinoma in the external auditory canal[J]. *Biomed J*, 2020, 43(2): 189-194.
- [6] Moody SA, Hirsch BE, Myers EN. Squamous cell carcinoma of the external auditory canal; an evaluation of a staging system[J]. *Am J Otol*, 2000, 21(4):582-588.
- [7] Arriaga M, Curtin H, Takahashi H, et al. Staging proposal for external auditory meatus carcinoma based on preoperative clinical examination and computed tomography findings[J]. *Ann Otol Rhinol Laryngol*, 1990, 99(9 Pt 1): 714-721.
- [8] Dong F, Gidley PW, Ho T, et al. Adenoid cystic carcinoma of the external auditory canal[J]. *Laryngoscope*, 2008, 118(9):1591-1596.
- [9] Liu H, Dai CF, Zhang Y, et al. Correlation between the pathology and clinical presentations in patients with adenoid cystic carcinoma of the external auditory canal [J]. *Head Neck*, 2017, 39(12): 2444-2449.
- [10] Gu FM, Chi FL, Dai CF, et al. Surgical outcomes of 43 cases with adenoid cystic carcinoma of the external auditory canal[J]. *Am J Otolaryngol*, 2013, 34(5): 394-398.
- [11] Pulec JL, Parkhill EM, Devine KD. Adenoid cystic carcinoma (cylindroma) of the external auditory canal[J]. *Trans Am Acad Ophthalmol Otolaryngol*, 1963, 67: 673.
- [12] 刘明波,周其友,武文明,等. 外耳道腺样囊性癌 24 例临床分析[J]. *中华耳科学杂志*, 2009, 7(1): 5-7.
- [13] 戴春富,李轩毅. 外耳道腺样囊性癌临床诊断和治疗的现状和探讨[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2018, 32(20):1527-1530.
- [14] 甄胜娟,付涛,齐金杰,等. 外耳道腺样囊性癌的临床特点分析[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2015, 29(4):343-345.
- [15] Zhang T, Li W, Dai C, et al. Evidence-based surgical management of T1 or T2 temporal bone malignancies[J]. *Laryngoscope*, 2013, 123(1): 244-248.
- [16] Moffat DA, Wagstaff SA. Squamous cell carcinoma of the temporal bone[J]. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*, 2003, 11(2): 107-111.

(收稿日期:2022-03-29)

本文引用格式:刘强,薛玉斌,张文阳,等. 颞骨次全切除术治疗外耳道腺样囊性癌的疗效分析[J]. *中国耳鼻咽喉颅底外科杂志*, 2023, 29(3): 45-48. DOI: 10. 11798/j. issn. 1007-1520. 202322105

Cite this article as:LIU Qiang, XUE Yubin, ZHANG Wenyang, et al. Subtotal temporal bone resection for adenoid cystic carcinoma of the external auditory canal [J]. *Chin J Otorhinolaryngol Skull Base Surg*, 2023, 29(3): 45-48. DOI: 10. 11798/j. issn. 1007-1520. 202322105