

Sert Damak Yerleşimli, Solid Tip Adenoid Kistik Karsinoma

In Hard Palate, Solid Type Adenoid Cystic Carcinoma: Case Report

Cihan BEREKET,^a
Özgün ŞENYURT,^a
Mehmet KOYUNCU,^b
İsmail ŞENER,^a
Ömer GÜNHAN^c

^aAğız, Diş, Çene Hastalıkları ve
Cerrahisi AD,
Ondokuz Mayıs Üniversitesi
Diş Hekimliği Fakültesi,

^bKulak Burun Boğaz Hastalıkları ve
Cerrahisi AD,
Ondokuz Mayıs Üniversitesi Tıp Fakültesi,
Samsun

^cPatoloji AD,
GATA, Ankara

Geliş Tarihi/Received: 21.04.2010
Kabul Tarihi/Accepted: 02.07.2010

*Bu olgu sunumu, 16. Uluslararası
Türk Oral ve Maksillofasiyal Cerrahi Derneği
Kongresi (3-8 Kasım 2009, Nevşehir)'nde poster
olarak sunulmuştur.*

Yazışma Adresi/Correspondence:
Cihan BEREKET
Ondokuz Mayıs Üniversitesi
Diş Hekimliği Fakültesi,
Ağız, Diş, Çene Hastalıkları ve
Cerrahisi AD, Samsun,
TÜRKİYE/TURKEY
cberek@omu.edu.tr

ÖZET Adenoid kistik karsinoma (AKK)'lar, tükürük bezi kaynaklı malign epitelyal neoplazmlardır. Sıklıkla sert damak yerleşimli olan AKK, klinik olarak yavaş ekspansiyon gösteren lezyonlar olarak tanımlanır. Histopatolojik olarak kribriform, tübüler ve solid olmak üzere üç alt tipi bulunmaktadır. Tedaviye en iyi yanıt alınan kribriform tipin aksine solid tip daha zayıf prognoz gösterir. Lezyonun kontrolü için yapılan radikal cerrahi ve radyoterapiye rağmen, tümörün lokal nüks ve metastaz oranı yüksek olduğundan uzun dönem yaşam süresi kısadır. Bu olgu sunumunda, total protez irritasyon fibromu olduğu düşünülerek ihmal edilen sert damak orta hat yerleşimli solid tip AKK'nin tedavisi ve beş yıllık izlemi sunulmuştur.

Anahtar Kelimeler: Karsinom, adenoid kistik; sert damak; tükürük bezleri, minör

ABSTRACT Adenoid cystic carcinomas (ACC) are malignant epithelial neoplasms, originated from the salivary glands. It is clinically characterized by slow expansion, and its frequent. Localization is the hard palate. Histopathologically it presents three subtypes; cribriform, tubular and solid. The solid type has a poor prognosis contrary to the cribriform type, which responds to treatment better. Despite radical surgery and radiotherapy are applied for local and regional control in ACC, there is a high incidence of local recurrence and metastasis, results in the low long-term survival rate. This paper presents treatment and five years follow up of the ACC, solid type neoplasm in the midline hard palate, which is neglected as if prosthesis irritation fibroma.

Key Words: Carcinoma, adenoid cystic; palate, hard; salivary glands, minor

Türkiye Klinikleri J Dental Sci 2012;18(3):347-51

Adenoid kistik karsinoma (AKK)'lar, tükürük bezi kaynaklı malign epitelyal neoplazmlardır.¹ AKK; baş-boyun bölgesinde görülen malign tümörlerin %1'ini, tükürük bezleri tümörlerinin %10'unu ve minör tükürük bezi tümörlerinin ise %25'ini oluşturmaktadır.²⁻⁴

Oral kavitede en sık sert damakta, özellikle palatin foramen etrafında görülmektedir.⁵ AKK histopatolojik olarak kribriform, tübüler ve solid olmak üzere üç alt gruba ayrılır.⁵⁻⁸ Tipik olarak ağrısız ve yavaş ekspansiyon gösteren neoplazmlardır.¹ Genellikle yaşamın 5 ve 6. dekadlarında ortaya çıkmakta ve sıklıkla kadınları etkilemektedir.³

Lezyonun kontrolü için yapılan radikal cerrahi ve radyoterapiye rağmen, tümörün lokal nüks ve metastaz oranı yüksek olduğundan uzun dönem yaşam süresi kısadır.^{1,9}

Bu olgu sunumunda, total protez irritasyon fibromu olduğu düşünülerek ihmal edilen sert damak orta hat yerleşimli solid tip AKK'nin klinik radyolojik bulguları ve tedavisi sunulmuştur.

OLGU SUNUMU

Kırk dört yaşında kadın hasta, iki aydır var olan palatinal bölgede yerleşik ağrılı kitle şikâyetiyle Ondokuz Mayıs Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş, Çene Hastalıkları ve Cerrahisi Kliniğine başvurmuştur.

Ağız içi muayenede sert damağın orta hattında yerleşik, 4x3x1,5 cm boyutlarında üzeri normal mukozayla kaplı, sert, hareketsiz kitle tespit edilmiştir (Resim 1).

Hastadan alınan anamnezde, hastanın daha önce maksiller total protezini kullanamama şikâyetiyle başvurduğu bir diş hekimi tarafından total protezi kitlenin sınırlarına göre aşındırmalar yapılarak maksillaya uyumlandırıldığı öğrenilmiştir (Resim 2).

Panoramik radyografide, total dişsiz hastada, üst çenenin aşırı atrofisi dikkat çekici olup, ilgili bölgede anormal dansitometrik değişim gözlenmiştir (Resim 3).

Maksillofasiyal bilgisayarlı tomografi (BT) de; lezyonun maksilla sağ yarısını destrükte ederek in-



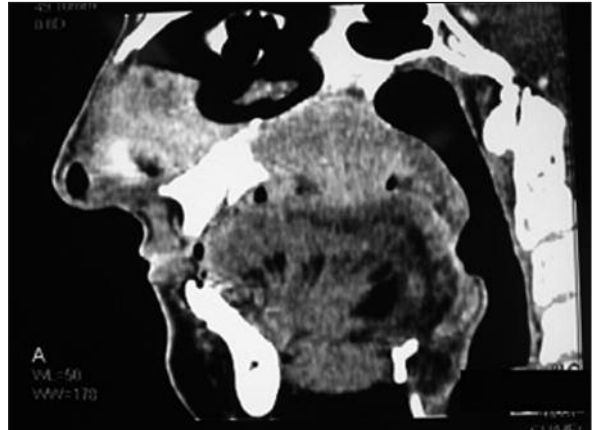
RESİM 1: Hastanın ilk muayenesinde ağız içi lezyon görüntüsü. (Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)



RESİM 2: İnsizyonel biyopsiden bir hafta sonra lezyonda meydana gelen ülserasyon ve kitleye uyumlandırılan total protezin görüntüsü. (Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)

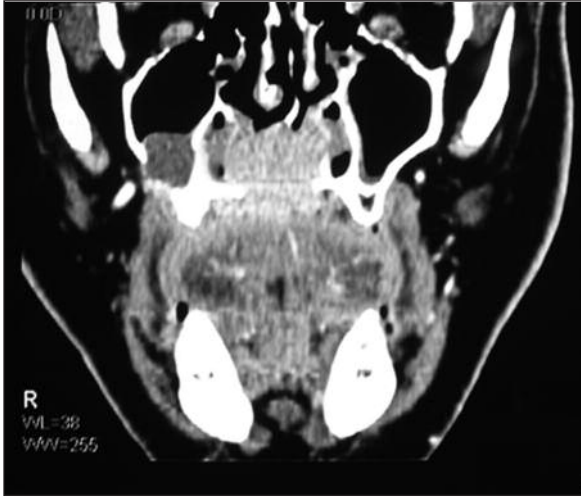


RESİM 3: Hastanın panoramik radyografi görüntüsü.



RESİM 4: Hastanın sagittal kesitte bilgisayarlı tomografilerinde lezyonun görüntüsü.

ferior konkalara kadar genişlediği, sert damak ve nazal septum posterioruna invazyon sergilediği görülmüştür (Resim 4, 5).



RESİM 5: Hastanın koronal kesitte bilgisayarlı tomografilerinde lezyonun görüntüsü.

Lokal anestezi altında kitleden insizyonel biyopsi yapıldıktan sonra, histopatolojik inceleme sonucunda solit tip AKK rapor edilmiştir (Resim 6). AKK teşhisi göz önünde bulundurularak hasta uzak-yakın metastaz ve lenfadenopati açısından ayrıntılı olarak taranmış, inceleme sonucu metastaz yönünde pozitif bir bulguya rastlanmamıştır. İyi bir prognoz elde etmek için, tümörün malignitesi ve nöral invazyon olasılığı dikkate alınarak boyun diseksiyonu yapılmadan total maksillektomi gerçekleştirilmiştir (Resim 7). Operasyondan 1,5 ay sonra radyoterapi başlamıştır. Operasyondan 6 ay sonra hastanın yeme, konuşma ve estetik rehabilitasyonunu sağlayan maksiller obturatör hazırlanmıştır (Resim 8). Hastanın beş yıllık izleminde nüks ve metastaz gözlenmemiş olup, kontroller devam etmektedir (Resim 9).

TARTIŞMA

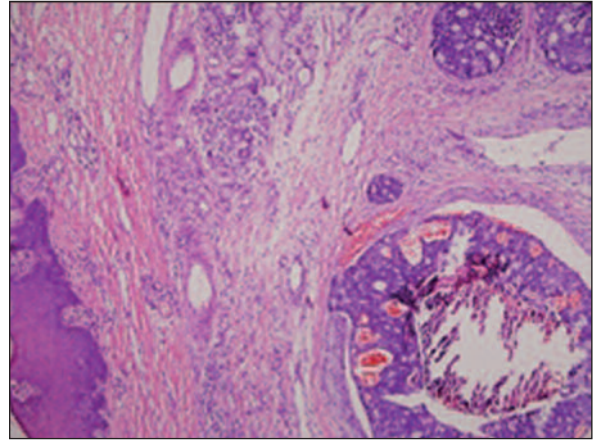
AKK genellikle yaşamın 5-6. dekadlarında görülür. Yirmi yaşın altındaki bireylerde görülme olasılığı oldukça düşük olup, kadınlarda görülme oranı erkeklerden daha yüksektir.^{3,7,10} Oral bölgede AKK'lara en çok palatal bölge ve azalan oranda bukkal bölge, dudak, mandibula ve ağız tabanında rastlanmaktadır.^{8,11} Bianchi ve ark., AKK olgularının %71,6'sında palatal tutulum bildirmiştir.

AKK olguları genellikle agresif, yavaş büyüyen bir şişlik şeklinde başlar ve geç dönemlerine kadar sessiz bir seyir izler. Şişliğin olduğu bölgede ağrı şi-

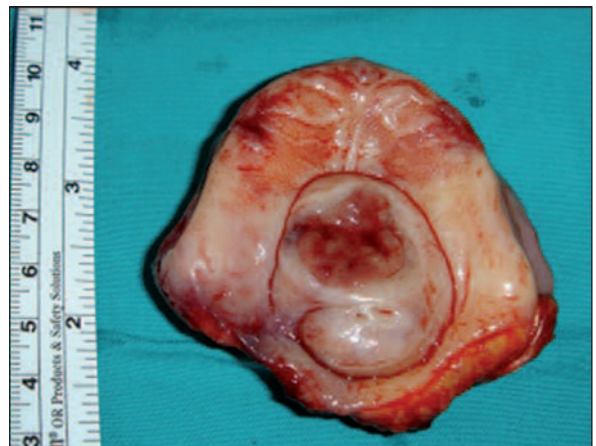
kâyetinin varlığı sık rastlanılan bir bulgu değildir. Ancak kemik invazyonu veya perinöral yayılıma bağlı ağrı veya hipoestezi meydana gelebilmektedir.^{8,12,13}

Damakta oluşan lezyonlar klinik olarak sert kıvamlı, düzgün yüzeyle, ülserasyon göstermeyen, submukozal yerleşimlidir. Radyolojik incelemede kemik yıkımının görülmesi sık karşılaşılan bir durumdur.^{10,13,14} Olgumuzun orta yaşta kadın olması, lezyonunun klinik ve radyolojik belirtileri literatürle uyumaktadır.

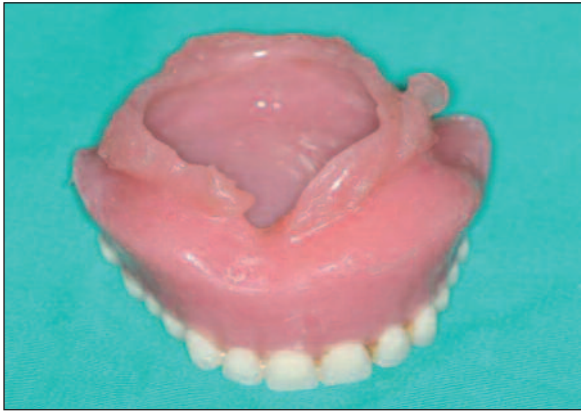
AKK'nin prognozunda, histoloji ve hastalığın klinik evreleri önemlidir. Tümörün nöral invazyonu ve uzak metastazları siktir.^{9,15} Olguların %40-



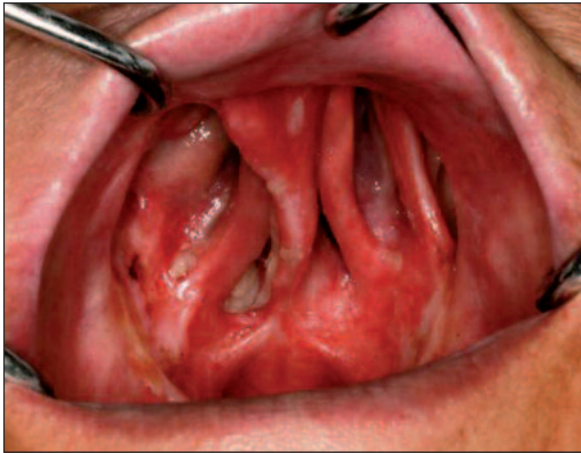
RESİM 6: Atipik epitelial hücrelerin oluşturduğu solit adalar ve kribriform dizilim gösteren invaziv tümörün histopatolojik görüntüsü (HE, x100). (Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)



RESİM 7: Rezeke edilen maksilla ve kitle görüntüsü. (Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)



RESİM 8: Hastanın operasyondan sonra kullandığı obturatörün görüntüsü.
(Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)



RESİM 9: Hastanın operasyondan beş yıl sonraki ağız içi görüntüsü.
(Renkli hali için Bkz. <http://dishekimligi.turkiyeklinikleri.com/>)

60'ında akciğer ve kemiklere azalan oranda ise beyin ve böbreklere ise uzak metastaz görülmektedir.^{1,12,16} Tümörün solid tipiyle lezyonun agresif ilerlemesi arasında ilişki kurulmuştur.¹⁷ Solid gelişim gösteren AKK'ler tedaviye en zayıf yanıt veren tümörlerdir. Ağrısız gelişim gösterirler ve genellikle erken dönemde yüksek agresif klinik seyir izlemektedirler. Tedavi sonrasında sıklıkla nüksle karşılaşılır.⁸ Solid tip AKK'lerde uzak organ metastazı daha hızlı gerçekleşmektedir ve hastanın yaşam süresi daha kısadır.¹

Tümörün burun, paranasal sinüsler ve maksillayı tutması prognozu daha kötüleştirmektedir.¹⁸ Cerrahi sınırlarda artık hücre kalması ve perinöral tutulum nüksü ve hayatta kalmayı olumsuz etkiler.³ Erken teşhis edilen ve tutulumun sınırlı ol-

duğu olgularda lezyonun cerrahi olarak tamamen uzaklaştırılması hastanın yaşam süresini uzatmaktadır.¹⁹

AKK'nin tedavi planlamasında ilk tercih, kitlenin cerrahi olarak eksizyonudur.¹ AKK olgularında; Le ve ark.nın N0 olgularda da profilaktik boyun diseksiyonu önermişlerdir.²⁰ AKK olgularında lenfatik metastaz görülme oranını araştıran çalışmalarda, Clark ve ark. olgularının %8'inde, Terhaad ve ark. vakalarının %6'sında karşılaştıklarını bildirmişlerdir.^{13,21} Araştırmacılar, kesin tanı konulmuş lenfatik metastaz gösteren AKK olgularında selektif boyun diseksiyonunu önermişlerdir. Bu olguda boyun lenflerinde tutulumla dair bir kanıt olmadığından boyun diseksiyonu gerçekleştirilmemiştir.

AKK'larda erken dönem tedavisinde radyoterapi ile iyi yanıt alınmasına karşın, 3-5 yıl içerisinde gözlenen lokal nükslerden dolayı tek başına radyoterapi tercih edilen bir tedavi yöntemi değildir.²² AKK'nin vasküler invazyonu ve perinöral infiltrasyonu total eksizyonunu zorlaştırdığından, lokal ve bölgesel yayılımının kontrolünde postoperatif radyoterapiden yararlanılmaktadır.^{1,4,5} Radikal cerrahi ve radyoterapi uygulanan olgularda hayatta kalma oranı ilk beş yılda %77, 10 yılda %57'dir.⁸ Mücke ve ark., oral kavitede minör tükürük bezi tümörü bulunan 95 hastanın %34,7'sinin AKK olduğu ve bunların 5. yılda %73'ünün ve 10. yılda %58'inin hayatta kaldığını bildirmiştir.¹¹ Wang, operasyon geçirmiş hastalarda primer lezyona 55-60 Gy radyoterapinin yeterli olduğunu belirtmiştir.²³ Hastaya radikal maksillektomi operasyonundan 6 hafta sonra radyoterapi uygulanmıştır. Hastaya radikal maksillektomi operasyonundan altı hafta sonra radyoterapi uygulanmıştır.

Maksilla yerleşimli, solid tip AKK olarak teşhis edilen lezyonun, protez fibromu düşünülerek diş hekimi tarafından hastanın geciktirilmiş olması, sunulan olguda prognoz ve hayatta kalma süresi için yüksek riskler oluşturmasına rağmen, uygulanan radikal cerrahi (maksillektomi) ve radyoterapi sonrası beş yıllık izleminde hâlihazırda uzak organ metastazının bulunmaması ve yaşamını nüksüz sürdürmesi literatürle karşılaştırıldığında önemlidir.

KAYNAKLAR

1. Mano T, Wada N, Uchida K, Muraki Y, Nagatsuka H, Ueyama Y. Central adenoid cystic carcinoma of the mandible with multiple bone metastases: case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2010;68(2):446-51.
2. Auclair P, Ellis G, Gnepp D, Wenig M, Janney G. Salivary gland neoplasms: general considerations. In: Ellis G, Auclair P, Gnepp D, eds. *Surgical Pathology of The Salivary Glands*. 1st ed. Philadelphia: WB. Saunders Co; 1991. p.135-64.
3. de Fátima Bernardes V, Cardoso SV, Mesquita RA, do Carmo MA, de Aguiar MC. Adenoid cystic carcinoma in palate and maxillary sinus. *Braz J Otorhinolaryngol* 2006;72(4): 573.
4. Karataş E, Kızılay A, Mızrak B, Özturan O. [Synchronous benign and malign tumor of the parotid gland: Pleomorphic adenoma and adenoid cystic carcinoma: differential diagnosis]. *Türkiye Klinikleri J Med Sci* 2006;26(5): 594-6.
5. 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(5):E417-20.
6. Orell SR. Diagnostic difficulties in the interpretation of fine needle aspirates of salivary gland lesions: the problem revisited. *Cytopathology* 1995;6(5):285-300.
7. World Health Organization Classification of Tumours. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, eds. *Pathology and Genetics. Head and Neck Tumors*. Geneva: WHO; 2005. p.430.
8. Orhan K, Yüksel Y, Görür D. [Solid adenoid cystic carcinoma of the maxilla: a case report]. *Official Publication of Hacettepe Dental Faculty* 2006;30(2):42-7.
9. Spiro R, Huvos A. Stage means more than grade in adenoid cystic carcinoma. *Am J Surg* 1991;164(6):623-8.
10. Neville B, Damm D, Allen C, Bouquet J. *Oral and Maxillofacial Pathology*. 2nd ed. Toronto (ON): WB Saunders Company; 2002. p.427-9.
11. Mücke T, Robitzky LK, Kesting MR, Wagenpfeil S, Holweg-Majert B, Wolff KD, et al. Advanced malignant minor salivary glands tumors of the oral cavity. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2009;108(1): 81-9.
12. Bianchi B, Copelli C, Cocchi R, Ferrari S, Pederneschi N, Sesenna E. Adenoid cystic carcinoma of intraoral minor salivary glands. *Oral Oncol* 2008;44(11):1026-31.
13. Clark J, Triana R, Meredith S. Uncontrolled central adenoid cystic carcinoma: case report. *Ear Nose Throat J* 2000;79(10):784-6.
14. Regezi JA, Sciubba J, Jordan R. *Oral Pathology: Clinical Pathologic Correlation*. 4th ed. Philadelphia: WB Saunders; 2003. p.209-12.
15. Ginsberg L, DeMonte F. Imaging of perineural tumor spread from palatal carcinoma. *AJNR Am J Neuroradiol* 1998;19(8):1417-22.
16. Manoharan M, Gomez P, Reyes MA, Soloway MS. Metastatic adenoid cystic carcinoma to the kidney in a young woman. *Urology* 2006;68(6):1343.e11-2.
17. Chummun S, Mc Lean N, Kelly C, Dawes P, Meikle D, Fellowst S, et al. Adenoid cystic carcinoma of head and neck. *Br J Plast Surg* 2001;54(6):476-80.
18. Jones AS, Hamilton JW, Rowley H, Husband D, Helliwell TR. Adenoid cystic carcinoma of the head and neck. *Clin Otolaryngol Allied Sci* 1997;22(5):434-7.
19. Haddad A, Enepekides DJ, Manolidis S, Black M. Adenoid cystic carcinoma of the head and neck: a clinicopathologic study of 37 cases. *J Otolaryngol* 1995;24(3):201-5.
20. Le QT, Birdwell S, Terris DJ, Gabalski EC, Varghese A, Fee W Jr, et al. Postoperative irradiation of minor salivary gland malignancies of the head and neck. *Radiother Oncol* 1999;52(2):165-71.
21. Terhaard CH, Lubsen H, Van der Tweel I, Hilgers FJ, Eijkenboom WM, Marres HA, et al.; Dutch Head and Neck Oncology Cooperative Group. Salivary gland carcinoma: independent prognostic factors for locoregional control, distant metastases, and overall survival: results of the Dutch head and neck oncology cooperative group. *Head Neck* 2004;26(8):681-92.
22. Yüksel M, Ercan S, Akgün S, Batırel H, Yıldızeli B. [Case report of a tracheal adenoid cystic carcinoma]. *Turkish Journal of Thoracic and Cardiovascular Surgery* 2000;8(1):553-5.
23. Wang CC. *Radiation Therapy for Head and Neck Neoplasms*. 2nd ed. Chicago, IL: Year Book Medical Publishers; 1990. p 327.