

外耳道耵聍腺肿瘤临床分析

吕 丹¹,杨 慧¹,江 丹²,周 鹏¹,刘 均¹,辜德英¹,乔怡歆³

(1. 四川大学华西医院 耳鼻咽喉头颈外科,四川 成都 610041; 2. 四川大学华西医院 病理科,四川 成都 610041; 3. 川北医学院临床医学院,四川 南充 637000)

摘 要: **目的** 探讨发生于外耳道耵聍腺肿瘤的临床表现、病理特点、治疗方法及预后。**方法** 收集我院 2004 年 9 月~2012 年 3 月确诊为外耳道耵聍腺瘤和耵聍腺癌的 3 例患者临床资料。**结果** 3 例患者中,初次诊断均为耵聍腺瘤(年龄 6~81 岁),均行手术治疗。随访过程中 3 例患者均复发,且有 1 例耵聍腺瘤患者在术后 2 年复发确诊为耵聍腺癌,行放射治疗后,肿瘤于 3 余年后再次复发,因基础情况差,未再行手术及放射治疗。另 2 例耵聍腺瘤患者经手术治疗后随访 4 年以上,未再复发。**结论** 耵聍腺肿瘤的确诊有赖于结合临床特点和组织病理学检查,应特别注意耵聍腺瘤与低度恶性耵聍腺癌的鉴别。早期诊断困难,术后容易复发,治疗以扩大切除为主,对于耵聍腺癌患者术后可辅以放射治疗。

关 键 词:外耳道;外耳道新生物;耵聍腺肿瘤
中图分类号:R739. 61 文献标识码:A 文章编号:1007-1520(2015)03-0195-04

Diagnosis and management of ceruminous gland tumor of external auditory canal (Report of three cases)

LYU Dan, YANG Hui, JIANG Dan, ZHOU Peng, LIU Jun, GU De-ying, QIAO Yi-xin
(Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, West China Hospital, Sichuan University, Chengdu 610041, China)

Abstract: **Objective** To analyze the clinical presentations, pathological features, treatment and prognosis of ceruminous gland tumor of the external auditory canal. **Methods** Clinical data of three cases with ceruminous gland tumor of the external auditory canal hospitalized in our department between Sept 2004 and March 2012 were analyzed retrospectively. **Results** The age of the three patients ranged from 6 to 81 (years). All the patients were diagnosed as ceruminoma and treated surgically. During follow-up period, tumors relapsed in all cases and reoperations were performed. Of them, one case with recurrence 2 years after initial operation was diagnosed as ceruminous adenocarcinoma, and received postoperative radiotherapy. However, relapse occurred 3 years after radiotherapy. No further treatment was performed due to patient's poor physical condition. The other two patients have been followed up for more than 4 years, and no recurrence occurred. **Conclusions** The diagnosis of ceruminous gland tumor relies on clinical characteristics and histopathologic findings. Special attention should be paid to the differentiation between ceruminous adenocarcinoma and ceruminous adenoma. Early diagnosis of this tumor is difficult, and the tumor is likely to relapse. Extended resection is the major treatment method. Postoperative radiotherapy should be applied to the patient with ceruminous adenocarcinoma.

Key words: External auditory canal; Ear neoplasm; Ceruminous gland tumor

耵聍腺肿瘤为外耳道较罕见的肿瘤,现国内外仅约 150 例病例报道^[1]。因该病少见,且症状无特异性,故临床极易误诊。为更好地总结该病的临床特点及诊治经验,现将我科 2004 年 9 月~2012 年 3 月收治的 3 例耵聍腺肿瘤病例报道如下。

1 临床资料

病例 1 患者,男,81 岁。因右耳听力下降伴间歇性疼痛 4 年,于 2004 年 9 月入院。4 年前,患者出现右耳渐进性听力下降,伴间歇性疼痛,至我院就诊,查体:右外耳道狭窄、塌陷,前壁可见新生物突

基金项目:四川省科技厅支撑计划(2012FZ0014);成都市科技局科技惠民项目(0040205301A66)。
作者简介:吕 丹,女,博士,讲师。
通信作者:杨慧,Email: yh8806@163.com

起,听力检测结果示右耳重度混合性听力损失。颞骨高分辨 CT(HRCT)示:右外耳道内软组织充填,乳突见少量软组织影,余未见明显异常。入院后行右外耳道新生物切除术,术中见右外耳道内段新生物,色红、质硬、界清、周围骨质无明显破坏,鼓膜完整。术后病理检查示耵聍腺瘤,细胞增生活跃,部分区周界欠清,浸润软骨组织(但组织形态学尚不能诊断为耵聍腺癌)。术后予以放射治疗,疼痛较术前减轻。术后 2 年余,患者再次出现耳痛症状,查体见右外耳道新生物几乎完全堵塞耳道,考虑肿瘤复发,行右外耳道新生物切除+耳道成形术。术中见:右外耳道口狭窄,外耳道前、前上及前下各壁新生物生长,肿物向前累及颞颌关节囊。术后病理检查示:耵聍腺癌(图 1),再次补充放射治疗。3 年后复诊时再次发现右外耳道新生物,取组织送检示增生鳞状上皮下见间质内少量具轻度异形性的腺体,不排除耵聍腺癌复发。因患者基础状况差,家属决定保守治疗,之后未再复查。

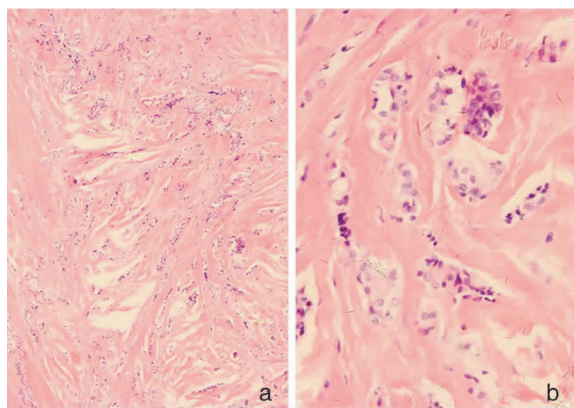


图 1 耵聍腺癌 a:癌细胞呈条索状、团块状排列,癌细胞向深部浸润(HE $\times 100$);b:癌细胞形态不一,可见核分裂像(HE $\times 200$)

病例 2 患者,男,65 岁。因左耳疼痛 1 年余,发现左外耳道新生物 10 余天,于 2005 年 12 月入院。1 年前,患者出现左耳前阵发性疼痛,院外诊断为“三叉神经痛”,经治疗后疼痛无明显减轻。至我院就诊时查体见:左外耳道新生物堵塞外耳道。听力检测示:左耳轻度传导性听力损失。取新生物送病检示:耵聍腺瘤。遂行左外耳道耵聍腺瘤切除术+外耳道成形术,术中见左侧外耳道软骨段后上壁新生物突起,表面光滑,周围骨质无明显破坏。术后病检与术前一致。术后 3 月余,患者发现左耳前一压痛性包块,查体见左耳轮脚处一约 $0.5\text{ cm} \times 0.5\text{ cm}$

包块。遂行左耳前包块切除术,术中见:肿物为 $0.5\text{ cm} \times 0.5\text{ cm} \times 0.4\text{ cm}$ 大小结缔组织样孤立性包块,与周围组织粘连重。术后病检为耵聍腺瘤,细胞增生活跃,有恶变倾向(但组织形态学尚不能诊断为耵聍腺癌)。随访至今已有 8 年以上,无复发。

病例 3 患者,女,6 岁。因左耳闷 1 余月,家长发现左外耳道新生物 10 d,于 2010 年 9 月入院。1 个月前患儿诉左耳闷不适,家长未引起重视。10 d 前,患儿家长发现患儿左外耳道新生物,遂于我院就诊。诊断为左外耳道新生物,遂行左外耳道新生物切除术,术中见:左外耳道前壁可见 $1.0\text{ cm} \times 0.5\text{ cm}$ 大小光滑灰白色新生物,质硬、无明显压痛,与周围组织分界清,鼓膜完整。术后病理检查示:耵聍腺瘤。2 个月后,患儿复查见左外耳道前壁原肿物生长处肿瘤复发,约 0.5 cm 大小,再次行左外耳道肿物切除术,并将新生物基底的软骨部分一并切除,术后病理结果为耵聍腺瘤。现已随访 4 年,未再复发。

2 讨论

耵聍腺肿瘤分为 4 类:腺瘤、混合瘤、腺样囊腺癌、腺癌,多认为前两型是良性,后两型为恶性^[2]。目前关于耵聍腺肿瘤的组织发生尚存在争议,部分学者认为其来源于正常分泌的耵聍腺,但也有学者认为只有外耳道的耵聍腺瘤和耵聍腺癌来源于外耳道的耵聍腺,而其他类型可能来源于异位于外耳道的涎腺组织^[3]。除此之外也有外耳道骨部发生耵聍腺瘤并局部恶变为耵聍腺癌^[4]及耵聍腺瘤发生于中耳的报道^[5]。

2.1 临床特征

外耳道耵聍腺瘤多见于中年人(52 ~ 54 岁)^[6-8],儿童罕见,目前国内外仅一篇关于儿童的文献报道^[9],男女发病率相似^[10]。耵聍腺瘤其症状无特异性,病程长短不一,从出现症状至就诊的时间间隔可为数年,最长达 40 年^[8]。其症状常与肿瘤大小相关,如耳闷、听力下降、面瘫、耳痛、流液及流血症状,其中耳痛常与肿瘤侵犯周围组织有关,因此外耳道肿物伴耳痛应警惕耵聍腺癌的可能^[11],但也有耵聍腺瘤出现耳痛症状及耵聍腺癌患者无任何症状的报道^[12-13]。耵聍腺瘤的外观多为红色息肉样肿物或外耳道结节;耵聍腺癌常呈粉红色,带蒂或弥漫性浸润致外耳道红肿、狭窄,且可通过外耳道软骨及骨缝浸润至周围组织,亦有耵聍腺癌转移至同侧

颈部淋巴结的报道^[14],从而大大增加治疗的难度。

2.2 影像学特点

颞骨 HRCT 对评估肿瘤与周围组织间的关系十分重要。耵聍腺瘤 HRCT 的表现多为:外耳道内软组织影,边界清楚,周围未见骨质破坏^[12,15],而耵聍腺癌的 HRCT 则与病变程度相关,表现亦较多样化,如骨质破坏或完整^[11,16-17]。因本组病例肿物较小,表面亦较光滑,加之对该病认识不足未考虑到该病的可能性,因此病例2和病例3均未行 HRCT 检查,而病例1的初诊 CT 结果示右外耳道内软组织充填,未见明显骨质破坏,但当肿瘤复发再次 CT 检查就发现外耳道骨质有破坏。因此对于伴耳痛及听力下降的外耳道新生物,建议常规行颞骨 HRCT。

2.3 病理学特征

耵聍腺肿瘤的诊断主要根据病理学形态进行诊断。镜下可见耵聍腺瘤由高分化的腺管状、导管样或乳头状腺体组成,腺上皮呈双层排列,腺体常成群排列,外面包绕着纤维结缔组织,无核分裂、多形性、坏死和浸润改变。免疫组织化学可帮助鉴别诊断^[8],Shen 等^[18]发现 Glut-1, HIF-1 α , PI3K 和 p-Akt 与耵聍腺瘤的发展相关。耵聍腺癌可根据细胞异型程度分为低度恶性和高度恶性,前者由更小、分化更好的腺体或细胞构成^[19],后者由不规则的管状或腺状结构构成。病理学上低恶性耵聍腺癌与耵聍腺瘤之间的鉴别有一定的困难,肿瘤是否向周围组织浸润破坏是鉴别二者的要点^[8]。

2.4 鉴别诊断

其鉴别诊断主要是耵聍腺瘤与低恶性耵聍腺癌间的相互鉴别,除此之外还应与外耳道骨瘤、复发性多软骨炎、外耳道肉芽、皮脂腺囊肿、耳神经痛、脑膜瘤、副神经节瘤、外耳道息肉及慢性中耳炎等疾病相鉴别^[8,17,19]。本组患者中,病例2也曾因耳痛被误诊为三叉神经痛。因此建议对于以耳痛为主诉的中年患者,应仔细检查耳部,以排除耵聍腺肿瘤的可能性。

2.5 治疗及预后

一旦确诊为耵聍腺肿瘤,则应手术切除。鉴于耵聍腺瘤较易复发,且复发肿瘤存在恶变倾向,因此应在诊断明确的基础上尽量彻底切除肿物。耵聍腺癌由于其浸润性生长的特点、其边界常不清,局部切除复发率极高,一般多为数月,但也有术后7年复发的报道^[20]。因此对于耵聍腺癌患者在手术时除需切除外耳道软骨部外,根据病情还可能需行乳突根治术及腮腺部分切除术,除此之外还需注意是否存

在肺、脑、腮腺、乳腺、骨及肾脏等处的转移^[20]。切除后应长期随访,必要时可辅以放射治疗,但需注意放射治疗的效果十分有限,Srivalli 等^[19]认为对于晚期肿瘤患者给予70 Gy的放射治疗剂量对局部控制肿瘤生长有一定作用。

本组第1例患者,首次手术时诊断为耵聍腺瘤,术后2年复发,并转化为耵聍腺癌,给予放射治疗,3年后肿瘤再次复发。该例患者多次复发可能与初期诊断不明,切除范围不够彻底及该肿瘤细胞浸润软骨组织等因素相关。第2例患者手术后3月余出现耵聍腺瘤在耳前的异位生长,考虑可能存在异位耵聍腺。第3例患者在术后2月余出现耵聍腺瘤复发,这可能因首次手术缺乏对该病的考虑和认识,手术切除范围不够,第2次行扩大切除后,患者未再复发。

参考文献:

- [1] Elsurer C, Senkal HA, Baydar DE, et al. Ceruminous adenoma mimicking furunculosis in the external auditory canal [J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2007, 264(3): 223-235.
- [2] Lynde CW, Mdean DI, Word Ws, et al. Tumors of ceruminous gland [J]. J Am Acad Dermatol, 1984, 11(1): 841-847.
- [3] Mills RG, Douglas-Jones T, Williams RG. 'Ceruminoma'-a defunct diagnosis [J]. J Laryngol Otol, 1995; 109(3): 180-188.
- [4] 曲维东, 金峰, 刘颖. 外耳道骨部耵聍腺瘤恶变1例 [J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2007, 14(10): 605.
- [5] 朱杭军, 张建新, 孙秀兰. 原发于中耳耵聍腺瘤1例报道(附文献复习) [J]. 解剖与临床, 2011, 16(4): 313-314.
- [6] 陈杰, 王健, 邓毅. 耵聍腺肿瘤临床分析 [J]. 山东医大基础医学院学报, 2001, 15(1): 9-10.
- [7] Lassaletta L, Patro'n M, Olo' riz J, et al. Avoiding misdiagnosis in ceruminous gland tumours [J]. Auris Nasus Larynx, 2003, 30(3): 287-290.
- [8] Thompson LD, Nelson BL, Barnes EL. Ceruminous Adenomas: A Clinicopathologic Study of 41 Cases With a Review of the Literature [J]. Am J Surg Pathol, 2004, 28(3): 308-318.
- [9] Giuseppe M, Serena B, Sandro B, et al. Adenoma of the Ceruminous Gland (Ceruminoma) [J]. Otol Neurotol, 2011, 32(2): 14-15.
- [10] Thompson LD. Ear ceruminous adenoma [J]. Ear Nose Throat J, 2011, 90(7): 304-305.
- [11] Tzagaroulakis A, Pasxalidis J, Papadimitriou N, et al. Recurrent ceruminous adenocarcinoma of the external auditory canal [J]. ORL J Otorhinolaryngol Relat Speec, 2003, 65(5): 300-302.
- [12] Elsurer C, Senkal HA, Baydar DE, et al. Ceruminous adenoma mimicking furunculosis in the external auditory canal [J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2007, 264(3): 223-225.
- [13] Koopot R, Reyes C, Pifarre R. Multiple pulmonary metastases

from adenoid cystic carcinoma of ceruminous glands of external auditory canal. A case report and review of the literature[J]. J Thorac Cardiovasc Surg,1973,65(6):909-913.

[14] Thomas R, Kumar KA. Ceruminous adenocarcinoma with cervical lymph node metastasis[J]. Indian J Otolaryngol,1996,48(2):135-136.

[15] 王冬冬,周景. 左外耳道耵聍腺腺瘤 1 例[J]. 诊断病理学杂志,2002,9(1):59.

[16] Kim CW, Rho YS, Cho SJ. A case of ceruminous adenocarcinoma of the external auditory canal presenting as an aural polyp[J]. Am J Otolaryngol,2008,29(3):205-208.

[17] Selcuk A, Ensari S, Cetin MA, et al. Ceruminous gland carcinoma of the external auditory canal presenting as chronic otitis media [J]. B-ENT,2007,3(4):195-199.

[18] Shen WQ, Cheng KJ, Bao YY, et al. Expression of Glut-1, HIF-1 α , PI3K and p-Akt in a case of ceruminous adenoma[J]. Head Neck Oncol,2012,4:18.

[19] Srivalli M, Qaiyum HA, Moorthy PN, et al. Adenomatous Neoplasia Presenting as aural polyp[J]. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg,2012,64(1):87-89.

[20] Hicks GW. Tumors arising from the glandular structures of the external auditory canal[J]. Laryngoscope, 1983,93(3):326-340.

(修回日期:2014-10-22)

· 消息 ·

远程投稿、查稿系统启事

本刊采用远程稿件采编系统进行投稿、查稿等,现就有关问题说明如下。

1. 作者投稿:登陆在线投稿系统(中文版),按操作提示投稿。第 1 次需先注册,原则上不再受理邮寄稿件和 Email 稿件。

2. 稿件查询:使用作者注册用户名和密码,可查询作者稿件审理进程和费用信息等。

有关投稿要求,请登陆本刊网站浏览。

网站登陆:<http://www.xyosbs.com/index.htm>

《中国耳鼻咽喉颅底外科杂志》2016 年征订启事

《中国耳鼻咽喉颅底外科杂志》是中华人民共和国教育部主管、中南大学主办、中南大学湘雅医院承办、国内外公开发行的医学学术性期刊。本刊以耳鼻咽喉颅底外科工作者为主要读者对象,重点报道耳鼻咽喉颅底外科领域内领先的科研成果、基础理论研究及先进的临床诊疗经验。本刊设有论著、短篇论著、临床报道、经验交流、技术与方法、病案报道、综述等栏目。本刊为双月刊,定价 12.00 元,全年 72.00 元,全国各地邮局均可订阅,邮发代号 42-171。本刊编辑部可免费为读者代办邮购。通讯地址:湖南省长沙市湘雅路 87 号中南大学湘雅医院《中国耳鼻咽喉颅底外科杂志》编辑部(湘雅医院内),邮编:410008,投稿网址:<http://www.xyosbs.com>,Email:xyent@126.com,电话(传真):0731-84327469;0731-84327210。欢迎踊跃投稿、积极订阅。