

Tükürük Bezi Benzeri Meme Karsinomu/Adenoid Kistik Karsinom: Olgu Sunumu

Salivary Gland Like Breast Carcinoma/Adenoid Cystic Carcinoma: Case Report

Turan Acar¹, Murat Kemal Atahan¹, Salih Can Çelik¹, Kürşat Yemez¹, Gülden Ballı Ülker¹, Seyran Yiğit², Ercüment Tarcan¹

¹Genel Cerrahi Kliniği, İzmir Katip Çelebi Üniversitesi Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Genel Cerrahi, İzmir, Türkiye

²Patoloji Kliniği, İzmir Katip Çelebi Üniversitesi Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Patoloji Kliniği, İzmir, Türkiye

ABSTRACT

Adenoid cystic carcinoma of the breast constitutes approximately 0.1% of all breast tumors. They can be located in the trachea, bronchus, cervix, lacrimal gland, and skin as well as the breast. Tumors in the breast have better prognoses compared to those in other locations. The diagnosis and treatment planning of this tumor is challenging due to its rare incidence. In this article, we presented a case that was diagnosed with adenoid cystic carcinoma of the breast upon pathology evaluation.

A 59-year-old female patient was admitted to our clinic due to a mass in her right breast. Her mammography revealed a 1 cm in diameter mass in the upper outer quadrant of the right breast, which was classified as BIRADS 4C (Breast Imaging Reporting and Data System). On magnetic resonance imaging (MRI) the lesion was also reported as BIRADS 4C. The patient underwent breast conserving surgery (BCS), and the pathology result was reported as adenoid cystic carcinoma of the breast. The patient received chemo-radiotherapy in the post-operative period.

Adenoid cystic carcinoma of the breast has been first described in the salivary glands. They can be confused with benign lesions both on physical and radiological examinations. Sentinel lymph node biopsy (SLNB) can be used since axillary metastases are rare. Local recurrence and distant metastases are also very rare. Usually, BCS followed by radiotherapy is adequate to obtain local control. In selected patients with a poor prognosis, chemotherapy and hormonal therapy should be added to the treatment.

Key words: Adenoid cystic carcinoma, breast carcinoma, sentinel lymph node biopsy

ÖZET

Tükürük bezi benzeri meme karsinomları (adenoid kistik karsinom), meme tümörleri içerisinde yaklaşık %0,1 oranında görülürler. Meme haricinde trakea, bronşlar, serviks, lakrimal gland ve deride de bulunabilirler. Meme yerleşimli olanların prognozu diğerlerinden daha iyidir. Çok nadir görüldüklerinden tanı ve tedavi planlanmasında bazı zorluklarla karşılaşmaktadır. Bizde bu yazıda, patoloji sonucu memenin tükürük bezi benzeri meme karsinomu çıkan bir olgumuzu sunduk.

59 yaşında bayan hasta sağ memede kitle nedeniyle polikliniğimize başvurdu. Çekilen mamagrofisinde sağ meme üst dış kadranda 1 cm çapında kitle saptandı ve BIARDS BIRADS 4C (Breast Imaging Reporting and Data System) olarak raporlandı. Çekilen manyetik rezonansda (MR) kitleyi BIARDS BIRADS 4C olarak tanımladı. Bunun üzerine hastaya sağ Meme Koruyucu Cerrahi (MKC) yapıldı ve patoloji sonucu; tükürük bezi benzeri meme karsinomu olarak raporlandı. Operasyon sonrasında hastanın tedavisine, hem kemoterapi hem de radyoterapiyle devam edildi.

Tükürük bezi benzeri meme karsinomları ilk olarak salgı bezlerinde tanımlanmıştır. Hem fizik muayenede hem de radyolojik olarak benign lezyonlarla karışabilirler. Aksilla metastazına çok sık rastlanmaz. Bu nedenle sentinal lenf nodu biyopsisi (SLNB) yapılabilir. Lokal nüks ve uzak organ metastazı da çok nadirdir. Genelde hastalarda MKC ve sonrasında adjuvan Radyoterapi eklenmesi lokal kontrolün sağlanması için yeterlidir. Prognozun kötü olduğu bazı seçilmiş hastalarda da kemoterapi ve hormonoterapi tedaviye eklenmelidir.

Anahtar sözcükler: Tükürük bezi benzeri meme karsinomu, adenoid kistik karsinom, sentinal lenf nodu biyopsisi

Giriş

Tükürük bezi benzeri meme karsinomları yani diğer adıyla Adenoid kistik karsinom (ACC), tüm meme kanserlerinin sadece %0,1'ini oluşturan, çok düşük insidansa sahip, malign meme tümörüdür (1). ACC, morfolojik olarak proliferatif bezler (adenoid kısım) ve stromal elemanların (psödoglandüler kısım) birleşiminden oluşmaktadır (2). Meme haricinde trakea, bronşlar, serviks, lakrimal bezler ve deride de bulunabilir. Meme yerleşimli olanların prognozu diğerlerinden daha iyidir ve lenf nodu tutulumu, uzak metastaz nadiren görülür (3, 4). Östrojen (ER) ve progesteron (PR) reseptörleri genellikle negatiftir. Çok nadir görüldüğünden tanı ve tedavi planlanmasında bazı zorluklarla karşılaşmaktadır. Bizde bu yazıda, patoloji sonucu memenin tükürük bezi benzeri meme karsinomu gelen bir olgumuzu, hastamızın onamını alarak, sunmayı amaçladık.

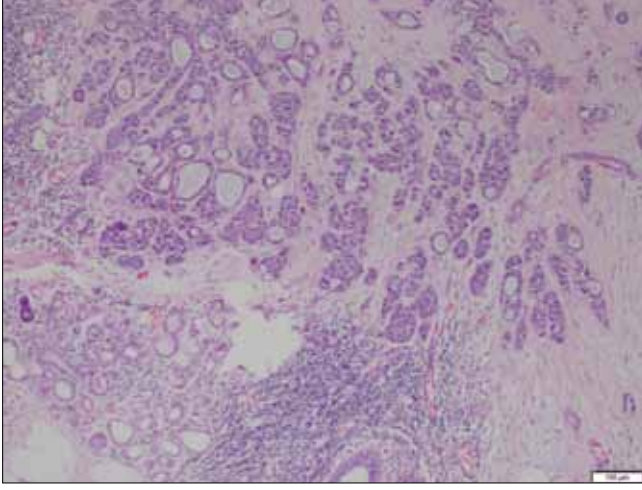
Bu çalışma 12. Ulusal Meme Hastalıkları Kongresinde poster olarak sunulmuştur. 24-27 Ekim 2013 Antalya, Türkiye.

This study was presented as a poster at the 12th National Breast Diseases Congress, 24-27 October 2013, Antalya, Turkey.

Yazışma Adresi / Address for Correspondence:

Turan Acar, İzmir Katip Çelebi Üniversitesi Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Genel Cerrahi, İzmir, Türkiye
Tel. / Phone: +90 507 215 31 04 e-posta / e-mail: drturanacar1982@gmail.com

Geliş Tarihi / Received: 25.01.2014
Kabul Tarihi / Accepted: 10.02.2014



Resim 1. Fibrotik stroma içinde trabeküler ve yer yer tübüler düzenlenim gösteren tümör

Olgu Sunumu

59 yaşında bayan hasta, sağ memede kitle nedeniyle polikliniğimize başvurdu. Özgeçmişinde tip iki diabetes mellitus ve hashimato tiroiditi mevcut. 2008'de hemoroidektomi ve sol memeden kitle eksizyon öyküsü mevcut. Eksize edilen kitlenin patoloji sonucu fibrokist olarak belirtilmiş. Glifor ve levotiroksin kullanıyor. Meme kanserine ait aile öyküsü yok. Sigara, alkol kullanmıyor. Yapılan meme muayenesinde; sağ meme üst dış kadranda ele gelen düzgün sınırlı mobil kitle palpe edildi. Memede eritem, ekimoz, meme derisinde ülserasyon ve çukurlaşma görülmedi. Bunun üzerine çekilen mamografisinde, sağ meme üst dış kadranda kabaca 1 cm çapında kitle saptandı ve BIRADS 4C olarak raporlandı. Çekilen Manyetik rezonansta (MR), kitleyi BIRADS 4C olarak tanımlandı. Bunun üzerine hastaya öncelikle telle eksizyon yapıldı. Patoloji laboratuvarına 5x4x3,5 cm boyutlarında çevresinde yağ dokusu bulunan telle işaretlenmiş ekzisyon materyali gönderildi. Materyale yapılan kesitlerde 1 cm çapında iyi sınırlı fibrotik alan izlendi. Bu alandan hazırlanan kesitlerde fibrotik stroma içinde trabeküler ve yer yer tubuler düzenlenim gösteren fokal infiltratif özellikte tümör izlendi (Resim 1). Tümörü oluşturan hücreler küçük hiperkromatik nüveli ve dar sitopazmalı olup bazaloid tipte idi. Ayrıca gerçek glandüler yapılar da dikkati çekti. Yapılan immunohistokimyasal çalışmalarda myoepitelyal hücre belirteçleri olan CD10 ve düz kas aktini ile ve ayrıca CD 117 ile fokal pozitiflik saptandı. Bu bulgular ile olgu tükürük bezi benzeri meme karsinomu, adenoid kistik karsinomla uyumlu olarak değerlendirildi. Tümör 1 cm çapında cerrahi sınıra bitişik olarak raporlandı. Sonrasında hastaya sağ meme koruyucu cerrahi (MKC) yapıldı ve rezidü tümör saptanmadı. Aksiller bölgeden disseke edilen 8 lenf nodunun hiçbiri metastatik değildi. Tümör T1N0M0 ve ER (-), PR (-), Cerb B-2 (-) idi. Operasyon sonrasında hastanın tedavisine, adjuvan kemoterapi ve radyoterapiyle devam edildi. Hastamız; lokal nüks ve uzak metastaz saptanmadan ortalama 40 aydır takip edilmektedir.

Tartışma ve Sonuçlar

Memenin tükürük bezi benzeri karsinomları arasında adenoid kistik karsinom ve asinik hücreli karsinom yer almaktadır Mukoepidermoid karsinom nadir görülmekle birlikte bazı yazarlar bu tümör metaplastik karsinom altında değerlendirmeyi uygun bulmaktadır (5). Adenoid kistik karsinom (ACC), tüm meme kanserlerinin sadece % 0,1'ini oluşturan, çok düşük insidansa sahip, malign meme tümörüdür (1).

Prognozu iyidir ve lenf nodu, uzak organ metastazı çok nadir görülür (3, 4). ACC, beyaz ırk ve kadınlarda daha sık görülmesine rağmen, bazı literatürlerde erkek hastalarda da tanımlanmıştır (6, 7).

5. ve 6. dekantlarda sık rastlanır, fakat literatürlerde en düşük 31, en yüksek 86 yaşında olan örnekler mevcuttur (8, 9). Bizim hastamız da 59 yaş ile literatürlere uygunluk göstermektedir.

Adenoid kistik karsinomunun hastalarda görülen en sık klinik bulgusu, genellikle areola çevresinde bulunan ele gelen kitle ve ağrı şeklindedir (8, 10). Bizim hastamızın da şikayeti ele gelen kitleydi. Nadiren de meme başı akıntısı şeklinde klinik bulgu verebilir (11). Mc Clenathan ve arkadaşlarının. (12) yapmış olduğu 22 hastalık retrospektif bir çalışmada, 10 hastanın memede ağrı şikayetiyle başvurduğunu belirtmiştir. (12). Memede ağrı ve hassasiyet bulunması, büyük olasılıkla tümörün perinöral invazyon yaptığının göstergesidir. Hematoksilin eozin (HE) ile boyanarak tanı konulabilir. Tümör hücrelerinde kalponin ve e-cadherin pozitifliğine rastlanabilir.

İyi sınırlı, mobil bir kitle olan ACC, radyolojik olarak benign yapılar ile karışabilmektedir. Kasagawa, mamografik (MMG) olarak spiküle görünüm veya mikrokalsifikasyon kümesi oluşturmayan yüksek dansiteli ve iyi sınırlı lobüle kitleler tarif etmiştir. Ultrasonografi de (USG) ise, lezyonlar hipoeoik görünümlü olarak saptanmıştır (13). Bizim hastamızda da MMG ve USG'de bu bulgulara benzer bulgular tarif edilmiştir.

ACC hastalarında aksiller lenf nodu metastazı nadir olarak görülür. Sumpio ve arkadaşlarının. (14) 'larının 120 hastalık serisinde, sadece bir hastada aksiller lenf bezi tutulumu bildirilmiştir (14). Arpino ve arkadaşlarının (15) yapmış olduğu 182 vakalık bir çalışmada da sadece 4 hastada aksiller lenf nodu metastazına rastlanmıştır (15). Yine aynı çalışmada, 14 vakada uzak organ metastazına rastlanmıştır ve bunlar da aksiller metastaz yapmadan uzak organ metastazı yapma eğilimindedirler. Bu nedenle ACC tanılı hastalarda radikal bir girişim olan aksiller diseksiyondan ziyade öncelikle sentinel lenf nodu biyopsisi (SLNB) yapılması akılda tutulmalıdır. Eğer sentinel lenf nodu örnekleme karsinom metastazı olarak yorumlanırsa, aksiller diseksiyon yapılması daha uygun olacaktır. Böylelikle aksiller diseksiyonun oluşturduğu morbiditeden de kaçınılmış olunur. Bizim hastamızda da yapılan aksiller diseksiyonda, herhangi bir metastatik lenf noduna rastlanılmamıştır.

ACC'de uzak organ metastazı da nadir görülür. Literatürler incelendiğinde en sık metastazın akciğere olduğu gözlenmektedir (13, 14). Diğer en sık metastaz alanları, karaciğer, beyin ve böbreklerdir (12, 16).

ACC düşük insidansa sahip olduğundan standart bir tedavi yaklaşımı belirtilmemiştir. Basit bir lumpektomiden, radikal mastektomiye kadar birçok tedavi yaklaşımı vardır. Fakat günümüzde radikal mastektomi, hem aksiller metastaz nadir olduğundan, hem de hastalardaki fiziksel ve psikolojik hasar nedeniyle tavsiye edilmemektedir. Bunun yerine, basit mastektomi birçok cerrah tarafından yaygın olarak kullanılmaktadır. Basit lumpektomide ise, düşük operatif hasar, hastalarda postoperatif daha az rahatsızlık hissi ve daha hızlı iyileşme avantajları vardır. Ancak lokal nüks yüksek olduğundan, basit lumpektomi çok önerilmemektedir. Santamaria ve ark. yapmış olduğu çalışmada, basit lumpektomi yapılan hasta grubunda yüksek lokal nüks oranları bildirilmiştir (17). Leeming ve arkadaşlarının. (18) yaptığı çalışmada ise, basit lumpektomi sonrası lokal nüks %37 ile yüksek bulunmuştur (18). Youk ve ark. (19) yaptığı çalışmada göstermiştir ki, eğer basit lumpektomi yapılmış ise sonrasında sistemik adjuvan kemoterapi ve radyoterapi verilmelidir (19). Böylece lokal nüks oranları azaltılabilmektedir.

Özellikle de hastayı takip etmek zor ise veya hastanın sosyokültürel, ekonomik düzeyi düşükse, basit mastektomi yapmak daha uygun olacaktır. Biz de hastamıza, yaşı ve sosyokültürel düzeyini göz önünde bulundurarak, meme koruyucu cerrahi uyguladık. Sonrasında da adjuvan kemoterapi ve radyoterapi verdik. Hastamızın 40 aylık takip süresinde, lokal ve uzak organ metastazı bulunmamaktadır.

Operasyonda çıkarılan piyesler hormon reseptörleri açısından incelendiğinde AAC'de ER ve PR genellikle negatiftir. Leeming ve arkadaşlarının. (18) yapmış olduğu 140 kişilik seride sadece bir hastada ER pozitif olarak bulunmuştur (18). Bizim hastamızda da ER, PR ve c-erb-B2 reseptörleri negatif olan triple negatif meme kanseri saptandı. Triple negatif invaziv meme kanserlerinin kötü prognoza sahip oldukları bilinirken, ACC olan hastalar farklılık göstermektedir. Önceki çalışmalarda, hormonoterapi olarak tamoksifen kullanılan hastalar bildirilmiştir, ancak hastamızın hormon reseptörleri negatif olduğundan hormonoterapi uygulanmamıştır.

Sonuç olarak; ACC tespit edilen hastalarda aksiller metastaza çok sık rastlanmadığından, SLNB yapılabilir. Ayrıca basit lumpektomi yapılanlar hariç, lokal nüks ve uzak organ metastazı nadir olduğundan, aksilla metastazı olan hastalarda MKC ve sonrasında adjuvan Radyoterapi eklenmesi yeterli bir tedavi yaklaşımı olarak görülmektedir. Prognozun kötü olduğu, bazı seçilmiş hastalarda ise kemoterapi ve hormonoterapi tedaviye eklenmelidir.

Ethics Committee Approval: N/A.

Informed Consent: Written informed consent was obtained from patients who participated in this study.

Peer-review: Externally peer-reviewed.

Author Contributions: Concept - T.A., M.K.A.; Design - T.A., S.C.Ç.; Supervision - T.A., E.T.; Funding - T.A., G.B.Ü.; Materials - T.A., K.Y.; Data Collection and/or Processing - T.A., S.Y.; Analysis and/or Interpretation - T.A., M.K.A.; Literature Review - T.A., E.T.; Writer - T.A., S.C.Ç.; Critical Review - T.A., G.B.Ü.; Other - T.A., K.Y.

Financial Disclosure: The authors declared that this study has received no financial support.

Conflict of Interest: No conflict of interest was declared by the authors.

Etik Kurul Onayı: N/A.

Hasta Onamı: Yazılı hasta onamı bu çalışmaya katılan hastalardan alınmıştır.

Hakem Değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Yazar Katkıları: Fikir - T.A., M.K.A.; Tasarım - T.A., S.C.Ç.; Denetleme - T.A., E.T.; Kaynaklar - T.A., G.B.Ü.; Malzemeler - T.A., K.Y.; Veri toplanması ve/veya işlemesi - T.A., S.Y.; Analiz ve/veya yorum T.A., M.K.A.; Literatür taraması - T.A., E.T.; Yazıyı yazan - T.A., S.C.Ç.; Eleştirel İnceleme- S.Y., G.B.Ü.; Diğer - T.A., K.Y.

Çıkar Çatışması: Yazarlar çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Finansal Destek: Yazarlar bu çalışma için finansal destek almadıklarını beyan etmişlerdir.

Kaynaklar

1. Law YM, Quek ST, Tan PH, Wong SL. Adenoid cystic carcinoma of the breast. *Singapore Med J.* 2009; 50: e8-e11. (PMID: 19224074)
2. Millar BA, Kerba M, Youngson B, Lockwood GA, Liu FF. The potential role of breast conservation surgery and adjuvant breast radiation for adenoid cystic carcinoma of the breast. *Breast Cancer Res Treat* 2004; 87: 225-232. (PMID: 15528965) [CrossRef]
3. Peters GN, Wolff M. Adenoid cystic carcinoma of the breast. Report of 11 new cases: Review of the literature and discussion of biological behavior. *Cancer.* 1983; 52: 680-686. (PMID: 6305483) [CrossRef]
4. Cavanzo FJ, Taylor HB. Adenoid cystic carcinoma of the breast: an analysis of 21 cases. *Cancer.* 1969; 24: 740-745. (PMIDubMed: 4309694)
5. *Breast Pathology* ed F P O'Malley, SE Pinder, AM Mullgan 2011; Elsevier p: 272.
6. Hoshino M, Yamamoto I.: Ultrastructure of adenoid cystic carcinoma. *Cancer* 1970; 25:186-198. (PMID: 4312026) [CrossRef]
7. AH Kızılbay, Patterson MC, Oliveria KF. Adenoid cystic carcinoma of the breast. Light and electron microscopy and a brief review of literature. *Arch patoloji Lab Med* 1977; 101: 302-306.
8. Anthony PP, James PD. Adenoid cystic carcinoma of the breast: prevalence, diagnostic criteria and histogenesis. *J Clin Pathol* 1975; 28: 647-655,1975. (PMID: 171285) [CrossRef]
9. Clotteau JE, Le MenecM, Premont M, Lemaigre G M et al. Cylindroma of the breast. *Chirurgie* 1983; 109:749-753, 1983. (PMID: 6097414)
10. Friedman BA, Oberman HA. Adenoid cystic carcinoma of the breast. *Am J Clin Pathol.* 1970; 54: 1-14. (PMID: 4323423)
11. Rosen PP. Adenoid cystic carcinoma of the breast: a morphologically heterogeneous neoplasm. In: Rosen PP, Fechner RE, editor. *Pathology Annu* 1989; 2:237-254. (PMID: 2549491)
12. McClenathan JH, de la Roza G. Adenoid cystic breast cancer. *Am J Surg.* 2002; 183: 646-649. (PMID: 12095593) [CrossRef]
13. Kasagawa T, Suzuki M, Doki T, Fujimori T, Itami M, Takenouchi T, et al. Yamamoto M. Two cases of adenoid cystic carcinoma: preoperative cytological findings were useful in determining treatment strategy. *Breast Cancer* 2006; 13: 112-116. (PMID: 16518072). [CrossRef]
14. Sumpio BE, Jennings TA, Merino MJ, Sullivan PD. Adenoid cystic carcinoma of the breast. Data from the Connecticut Tumor Registry and a review of the literature. *Ann Surg* 1987; 205: 295-301. (PMID: 3030200) [CrossRef]
15. Arpino G, Clark GM, Mohsin S, Bardou VJ, Elledge RM. Adenoid cystic carcinoma of the breast: molecular markers, treatment, and clinical outcome. *Cancer* 2002; 94: 2119-21-27. doi: 10. 1002/cncr. 10455. Review. 2002 Apr 15. (PMID: 12001107)
16. Coates JM, Martinez SR, Bold RJ, Chen SL. Adjuvant radiation therapy is associated with improved survival for adenoid cystic carcinoma of the breast. *J Surg Oncol* 2010;102:342-347. (PMID: 20589709) [CrossRef]
17. Santamaría G, Velasco M, Zanón G, Farrús B, Molina R, Solé M, Fernández PL. Adenoid cystic carcinoma of the breast: mammographic appearance and pathologic correlation. *Am J Roentgenol.* 1998; 171:1679-1683. (PMID: 9843312) [CrossRef]
18. Leeming R, Jenkins M, Mendelson G. Adenoid cystic carcinoma of the breast. *Arch Surg.* 1992; 127:233-235. (PMID: 1311551) [CrossRef]
19. Youk JH, Kim MJ, Kim EK, Lee JY, Oh KK, Park BW. Recurrence of adenoid cystic carcinoma in the breast after lumpectomy and adjuvant therapy. *J Ultrasound Med.* 2006; 25: 921-924. (PMID: 16798905)