

[文章编号] 1671-587X(2025)01-0215-07

DOI:10.13481/j.1671-587X.20250126

第二原发性气管腺样囊性癌1例报告及文献复习

王璐瑶, 赵晨曦, 张婉泽, 刘林林

(吉林大学中日联谊医院放疗科, 吉林 长春 130033)

[摘要] 本文作者报道1例第二原发性气管腺样囊性癌(TACC)患者的诊疗经过。从疾病发生学角度看, 该患者先后确诊气管基底细胞腺癌、气管腺样囊性癌, 此情况在临床极为罕见, 为研究不同类型气管癌的发病相关性及其差异性提供参考。同时, 在治疗过程中出现了放疗期间突发气管切开后切口大量出血的情况, 加深了对TACC放疗并发症的认识。患者, 女性, 61岁, 5年前因行气管基底细胞腺癌手术治疗, 1年前, 患者自觉劳力性呼吸困难并逐渐加重, 严重影响日常生活, 遂入院寻求进一步诊疗。体格检查见右颈部有一2 cm × 1 cm包块, 形态不规则, 表面皮温和皮色正常, 无触痛、无压痛, 活动度良好。喉增强计算机断层扫描(CT)提示, 气管右侧壁及后壁可见菜花样软组织样肿块影, 右侧锁骨上区胸锁乳突肌前缘结节, 考虑为气管内肿瘤复发。需与气管鳞状细胞癌等相鉴别, 鳞状细胞癌在病理形态上多有角化珠形成, 细胞异型性更明显, 免疫组织化学标志物也存在差异, 通过病理和免疫组织化学检查结果可有效区分。后行肿物连同气管壁切除, 并行右侧锁骨上肿物切除术。术后病理检查结果提示气管肿物腺样囊性癌, 局部神经可见累及。鉴于患者已出现气管阻塞症状且有TACC颈部淋巴结转移可能, 手术治疗是首要选择。术后放疗进一步控制局部残留肿瘤细胞, 降低复发风险, 提高局部控制率。放疗后随访12个月, 未见肿瘤复发迹象。临床医生应强化诊断思维, 高度警惕气管部位第二原发性肿瘤的可能, 综合运用多种检查手段进行全面评估, 提高早期诊断准确性, 避免误诊漏诊, 为患者赢得最佳治疗时机。

[关键词] 气管腺样囊性癌; 放射治疗; 第二原发性恶性肿瘤; 病例报告

[中图分类号] R734.1 **[文献标志码]** B

Second primary tracheal adenoid cystic carcinoma: A case report and literature review

WANG Luyao, ZHAO Chenxi, ZHANG Wanze, LIU Linlin

(Department of Radiotherapy, China-Japan Union Hospital, Jilin University, Changchun 130033, China)

ABSTRACT The author of this paper reported the diagnostic and treatment process of one patient with secondary primary tracheal adenoid cystic carcinoma (TACC). From the perspective of disease occurrence, the patient was successively diagnosed with tracheal basal cell adenocarcinoma and tracheal adenoid cystic carcinoma, which was extremely rare in clinical practice, providing a reference for studying the correlation

[收稿日期] 2024-10-25 [录用日期] 2024-11-26

[基金项目] 国家自然科学基金项目(81773523); 国家重点研发计划项目(2022YFE0110200); 吉林省科技厅科技发展计划国际科技合作项目(20240501002GH)

[作者简介] 王璐瑶(1998—), 女, 黑龙江省牡丹江市人, 在读硕士研究生, 主要从事肿瘤放疗基础和临床方面的研究。

[通信作者] 刘林林, 教授, 博士研究生导师(E-mail: liulinl@jlu.edu.cn)

©《吉林大学学报(医学版)》编辑部, 开放获取遵循CC BY-NC-ND协议。

© Editorial Board of Journal of Jilin University (Medicine Edition). Open access under CC BY-NC-ND license.

and differences in the incidence of different types of tracheal cancer. At the same time, during the treatment process, massive bleeding from the tracheostomy site occurred during radiotherapy, deepening the understanding of radiotherapy complications in TACC. The patient, a 61-year-old female, underwent surgical treatment for tracheal basal cell adenocarcinoma five years ago. One year ago, the patient experienced exertional dyspnea, which gradually worsened, severely affecting her daily life, leading to her hospital admission for further diagnosis and treatment. The physical examination results showed a 2 cm×1 cm irregular mass in the right neck, with normal skin temperature and color, no tenderness or pain on pressure, and good mobility. Enhanced computed tomography(CT) of the larynx indicated cauliflower-like soft tissue masses on the right and posterior walls of the trachea and a nodule on the anterior margin of the sternocleidomastoid muscle in the right supraclavicular region, suggesting recurrence of an intratracheal tumor. The differential diagnosis included tracheal squamous cell carcinoma, which often forms keratin pearls and exhibits more significant cellular atypia. The immunohistochemical markers are also different, and the results of pathology and immunohistochemistry examinations can effectively distinguish them. The patient underwent resection of the mass along with the tracheal wall and excision of the right supraclavicular mass. The postoperative pathology confirmed adenoid cystic carcinoma of the trachea with local neural involvement. Given the patient's symptoms of tracheal obstruction and the possibility of cervical lymph node metastasis of TACC, surgery was the primary treatment choice. Postoperative radiotherapy further controlled residual tumor cells, reduced the risk of recurrence, and improved the local control rates. After 12 months of follow-up post-radiotherapy, no signs of tumor recurrence were observed. The clinicians should reinforce diagnostic thinking and be highly vigilant for the possibility of secondary primary tumors in the trachea. They should comprehensively assess using various examination methods to improve the early diagnosis accuracy and avoid the misdiagnosis and missed diagnosis, thereby providing the best treatment opportunity for the patients.

KEYWORDS Tracheal adenoid cystic carcinoma; Radiotherapy; Second primary malignant tumor; Case report

原发性气管恶性肿瘤在所有恶性肿瘤中占比为0.1%~0.4%，其年发病率约为0.1/10万。气管恶性肿瘤在成人中的发病情况相较于儿童更为常见，从性别分布来看，男性与女性的发病率相近，其发病与吸烟无关^[1]。腺样囊性癌(adenoid cystic carcinoma, ACC)是一种罕见的癌症，好发于口腔和咽部的大唾液腺，也可发生于食管、喉、气管、肺、乳腺和前列腺等其他部位^[2]。原发性气管腺样囊性癌(tracheal adenoid cystic carcinoma, TACC)在所有气管肿瘤中占比达10%~15%，仅次于鳞状细胞癌(squamous cell carcinoma, SCC)。TACC起源于气管黏膜下层的浆膜腺，其生长进程较为缓慢，局部及远处转移率均处于较低水平。通常以喘息或喘鸣为主要症状表现，在疾病早期诊断较为困难，易被误诊为支气管哮喘和慢性支气管炎发作等^[3]。当前，手术为首选治疗方式，该疗法的适应症取决于病变的位置和范围。鉴于气管组织具有一定的放射敏感性，因此放疗可作为辅助治疗。放疗尤其适用于肿瘤累及手术边缘以及

存在不可切除病灶的情形，且可能与支气管内治疗相结合^[4]。第二原发性恶性肿瘤(second primary malignancy, SPM)是指与第一原发性恶性肿瘤(first primary malignancy, FPM)同时或先后发生的非转移或复发的独立癌症，若发生间隔时间在6个月以内，则为同时性，间隔时间超过6个月，则为异时性。目前，SPM的诊断多依据WARREN等于1932年提出的标准：①每个肿瘤均呈恶性，且各自具有独特的病理形态；②每个肿瘤发生在不同的部位，且二者不连续；③必须排除复发或转移的可能。研究^[5]表明：SPM是癌症长期幸存者中最常见的死亡原因之一。继发SPM会对患者的生活质量以及潜在的长期生存获益造成直接损害。SPM的发生风险因原发癌部位的不同而存在差异，在FPM中口腔癌、咽癌、喉癌、食道癌、肺癌和霍奇金淋巴瘤的患者中发生率相对较高。目前，国内外对于放疗后出现第二TACC的相关报道较少，且在相近位置出现2种病理类型癌症发病率相对较低。在头颈部肿瘤中，同一部位的SCC与腺癌并

存的情况时少有报道;在肺部可见腺癌与小细胞肺癌同时发生于同一肺叶的病例。现收集本院1例第二TACC患者的临床资料,并进行文献复习,结合诊疗过程探讨其发病原因、临床特点和诊断及治疗方法等,加深临床医生对该病的认识。

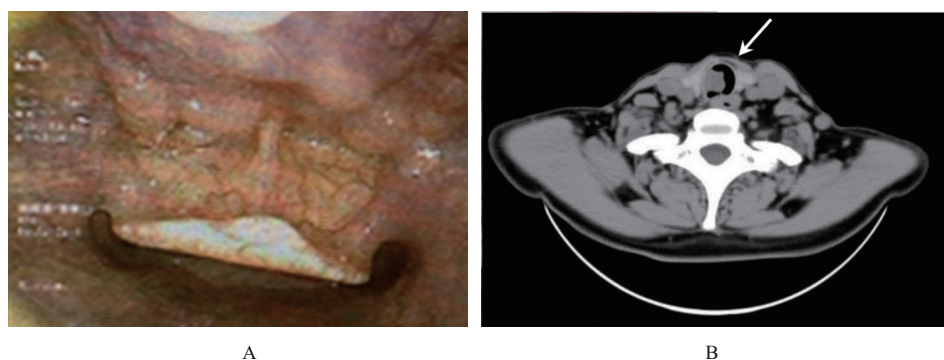
1 临床资料

1.1 一般资料 患者,女性,61岁,于2018年1月起出现活动后气短、呼吸困难症状,偶有咳嗽,无咳痰、声嘶、饮水呛咳及发热表现,此后症状渐趋加重。至2018年3月于休息时亦觉气短,无法平卧,遂就诊于外院,行胸部增强CT检查结果提示:气管上段右侧壁高密度影。气管镜检查所见:气管内距声门约4 cm处可见一新生物生长,导致管腔狭窄,气管镜难以通过;因患者声门活动活跃,进镜后呼吸困难显著,因此未实施病理检查。2018年4月8日予全麻下行气管内肿物切除术。术后病理检查结果显示:气管内基底细胞腺癌,低度恶性,肿瘤无包膜,侵及支气管鳞状上皮,偶见核分裂象,未见脉管及神经浸润。免疫组织化学检查结果显示:Ki-67(+30%),泛细胞角蛋白(cytokeratin pan, CK-pan)(+),甲状腺转录因子1(thyroid transcription factor-1, TTF-1)(-),细胞角蛋白7(cytokeratin 7, CK7)(上皮+),P63(肌上皮+),细胞角蛋白5/6(cytokeratin 5/6, CK5/6)(+),细胞角蛋白19(cytokeratin 19, CK19)(上皮+),CD117(部分+),可溶性蛋白100(soluble protein-100, S-100)(散在+)。术后恢复良好,但未行定期复查。

2023年6月患者因情绪欠佳再次出现轻度活动时呼吸困难,伴咽部异物感,在活动停止后可立刻好转,偶有咳嗽,无咳痰,无进食哽噎感,无声音嘶哑及饮水呛咳,无发热及体虚无力感,无颈部和面部麻木及疼痛感。2023年9月就诊于本院耳鼻咽喉头颈外科,专科查体:右颈部见一2 cm × 1 cm包块,形态不规则,表面皮温和皮色正常,无触痛、无压痛,活动度良好。

1.2 影像学检查 气管镜检查结果提示:声门下可见不平新生物,阻塞部分主气道(图1A)。喉增强计算机断层扫描(computed tomography, CT)检查结果提示:气管右侧壁及后壁可见菜花样软组织样肿块影,气管右侧壁及前壁可见弧形高密度影,右侧锁骨上区胸锁乳突肌前缘结节(图1B)。完善辅助检查后未发现其他远处转移。

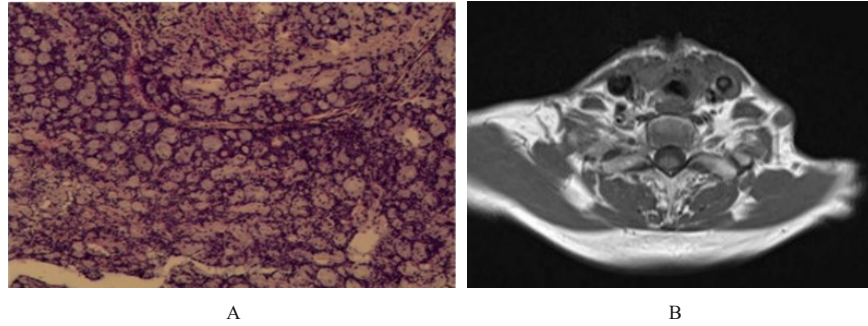
1.3 实验室检查 2023年9月28日行全麻下气管内恶性肿物切除术、气管重建术、气管切开术和颈部肿物切除术。术后病理检查结果显示:气管内肿物为腺样囊性癌,脉管未见确切累及,局部神经可见累及。右侧颈部淋巴结为转移性气管腺样囊性癌结节1枚(图2A)。对肿瘤组织行免疫组织化学检查,结果提示:CK7(+),P63(肌上皮+),CK5/6(+),Ki-67(热点区20%+),CD117(部分+),CK-pan(+),TTF-1(-)。术后10 d复查气管镜,结果显示:左侧披裂略水肿,声门下视不全。颈部软组织磁共振成像(magnetic resonance imaging, MRI)检查结果显示:气管局部右侧壁及后壁形态欠规整,未见异常信号影(图2B)。



Arrow indicated intrabronchial mass.

图1 TACC患者手术前气管镜检查(A)和喉部增强CT检查(B)

Fig. 1 Bronchoscopy examination(A) and contrast-enhanced laryngeal CT examination (B) of patient with TACC before surgery



A: Pathology examination (HE, $\times 40$); B: MRI examination.

图2 TACC患者术后病理检查和颈部软组织MRI检查

Fig. 2 Pathology examination and neck soft tissue MRI examination for patient with TACC after surgery

1.4 诊疗经过 患者术后20 d为求进一步治疗入本院放疗科。该患者临床诊断为恶性肿瘤放射治疗后、气管腺样囊性癌切除术后、颈部继发恶性肿瘤(右侧)术后。鉴于患者诊断明确,且各项常规检查未发现放疗禁忌证,遂开展放疗前准备工作:①患者取仰卧位,利用头颈肩热塑面膜予以体位固定,头枕采用C枕;②使用激光灯定位参考点,以铅点标记放疗靶区的中心,20 min后在患者处于静息状态下行CT平扫,扫描范围自头顶至锁骨下3 cm处,层厚3 mm;③将扫描图像导入Varian Eclipse 11.0计划系统,准备行靶区勾画。肿瘤靶区(gross tumor volume, GTV)包括原发肿瘤瘤床GTVtb。临床靶区(clinical target volume, CTV)分为CTV1和CTV2,CTV1包括气管,右侧Ⅲ、Ⅳ和Ⅵ区颈部淋巴结以及右侧锁骨上窝淋巴结;CTV2包括CTV1及右侧Ⅴ区颈部淋巴结。

CTV外扩3 mm定义为计划靶区(planning target volume, PTV)(图3)。以95%的PTV所接受的吸收剂量定义为处方剂量,分别给予,PGTV: 66 Gy/33次分割(fraction, F),每周5次分割;PTV1: 60 Gy/30 F, 5 F/周;PTV2: 50 Gy/25 F, 5 F/周。主要危及器官剂量限值:脑干最大剂量(maximum dose, D_{max}) < 54 Gy,脊髓 $D_{max} < 45$ Gy,眼球 $D_{max} < 50$ Gy,视神经和视交叉 $D_{max} < 54$ Gy,晶状体 $D_{max} < 9$ Gy,下颌骨平均剂量(mean dose, D_{mean}) 30~35 Gy,腮腺 $D_{mean} < 30$ Gy、至少一侧 $V_{30} < 50\%$ (V表示相应辐射剂量照射体积占总体积百分比)。采用直线电子加速器进行适形调强放射治疗(intensity modulated radiotherapy, IMRT)至总剂量42 Gy时,患者气管切开术后切口突发大量出血,出血量约为800 mL。随即紧急采用静脉滴注止血药物,并于介入科实施颈动脉栓塞治



图3 TACC患者术后放疗靶区设计图

Fig. 3 Design diagram of radiotherapy target area for patient with TACC after surgery

疗。术中患者偶有咳痰情况,痰液中夹杂少量血块(图4)。血常规检查结果显示:白细胞及中性粒细胞比例超出参考范围,遂给予抗炎及对症支持治疗。综合考量患者的一般状况、放疗效果和家属意见,本次放疗暂时终止,并叮嘱患者定期复查。

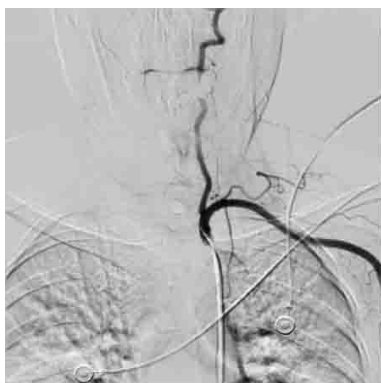


图4 TACC患者颈总动脉栓塞术中造影

Fig. 4 Angiography during common carotid artery embolization of patient with TACC

1.5 随访 放疗3个月后,来本院复查胸部CT、颈部软组织增强MRI及气管镜(图5),检查结果提示:气管肿物及右锁骨上肿物切除术后改变,气管插管术后。肿瘤病变消失,疗效评价为完全缓解。患者气短、咳嗽和咳痰等症状较术前明显好转。治疗后随访12个月,未见复发。

2 讨论

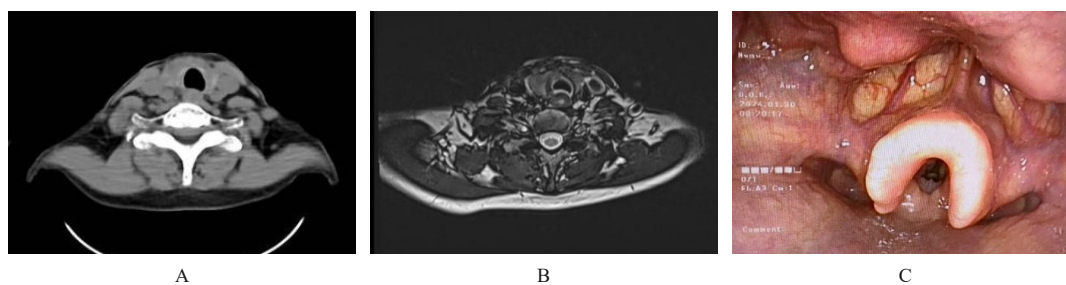
SPM的发展与FPM存在密切关联,其发生可能与既往癌症的治疗有关,如手术、放疗和化疗。结合本研究病例,在对放疗可能造成SPM的风险进行评估时发现小细胞肺癌、前列腺癌、膀胱移行细胞癌和浸润性导管乳腺癌等接受放疗的FPM患

者显示出较高的SPM发病率。但放疗诱导的SPM通常具有5年潜伏期,且鉴于多种因素对SPM易感性的影响,较难得出关于放疗造成SPM风险的明确答案。因此该例患者第二TACC的确切机制仍不十分明确。

组织病理学类型上,TACC属于低级别恶性,进展相对缓慢,可生长为息肉样或结节状,并突出到气管中,基底宽^[6]。TACC还可侵入气管,并沿管壁的长轴生长,浸润至黏膜下或纵向平面,导致手术切缘阳性率高,术后常复发^[7]。患者临床表现主要取决于肿瘤的部位、大小及生长方式,常见症状包括咳嗽、体位性喘息和劳力性呼吸困难,部分患者可因肿瘤阻塞气道而出现窒息^[8]。

影像学检查首选CT和支气管镜检查。胸部X线检查由于其分辨率较低,难以清晰显示肿瘤的细节特征^[9]。CT检查被认为是诊断气管肿瘤最可靠、方便且侵入性较小的工具,弥补了支气管镜检查的局限性。多排CT(multi-detector computed tomography, MDCT)及其后处理技术可准确判定原发性气管肿瘤的位置、性质(良性、恶性或低恶性)和范围(壁外浸润、纵向受累、管腔狭窄),为手术治疗提供重要信息^[10]。基于CT的评估包括肿瘤的增强程度、纵向和横向长度。纵向长度和增强程度能较好地地区分TACC与其他类型肿瘤。横向长度过长则是TACC复发的不良预测因子^[11]。MRI则在评估肿瘤与周围软组织的关系以及有无纵隔淋巴结转移等方面具有优势^[12]。正电子发射断层显像/CT(positron emission tomography/CT, PET/CT)则对显示残留肿瘤和放疗的靶区勾画有一定作用^[13]。

目前普遍认为,根治性手术切除与TACC中更好的生存结果存在关联。TACC患者单独手术的5年生存率为88%~100%,10年生存率为51%~



A: Chest CT; B: Neck soft tissue MR; C: Bronchoscopy.

图5 TACC患者放疗3个月后复查结果

Fig. 5 Results of reexamination of patient with TACC three months after radiotherapy

80%^[14]。然而,由于气管切除的范围有限且TACC倾向于在黏膜下组织中扩散,往往不能完全切除,通常切缘阳性率为59%~63%。扩大切除范围会增加手术并发症和死亡率。与显微镜下残留(R1)患者联合术后放疗比较,肿瘤完全切除(R0)切除后放疗表现出更好的预后,表明手术应尽可能实现R0切除,并在显微镜下气道阳性切缘患者应常规进行术后放疗^[15]。

对于手术切除不完全或不能手术切除的患者,放射治疗可作为一种有效的局部治疗手段。通常术后放疗剂量为60 Gy(每次2 Gy,每周5次,共6周)。气管内近距离放疗可用于姑息为目的治疗晚期。在疾病无法手术的情况下,单独放疗可以达到对疾病的充分局部控制,然而其疗效无法与手术治疗相媲美。可以通过电凝、冷冻疗法和光动力疗法等多种手术获得姑息治疗,尤其是在严重气道阻塞的情况下^[16]。在实施TACC放疗方案期间,鉴于放疗可能引发的各类并发症,需予以充分考量。特别是针对具有气管切开或其他相关手术既往史的患者群体,因其组织解剖结构和生理功能可能发生改变,放疗风险显著增加,故应当制定更为精细且针对性强的放疗计划以及全面、系统的监测方案。

TACC通常被认为具有化疗耐药性,单药化疗作为主要疗法的前景不佳,但可考虑用于远处转移的治疗,或在不可切除的TACC病例中与放疗联合使用^[17]。TACC的预后受多种因素影响,包括肿瘤位置、肿瘤切缘肉眼阳性、转移情况、P53表达及Ki-67指数等^[18-19],因此在评估患者预后时,应综合考虑上述因素,为患者制定个性化的治疗方案和随访计划。该例患者经过综合治疗后,目前随访12个月,患者一般状况良好,无肿瘤复发及转移,但仍需继续密切随访观察。TACC随访时,首先应关注患者呼吸道相关症状,如刺激性干咳变持续咳嗽伴少量咯血,提示气管肿瘤可能复发或新病变,还要了解患者有无呼吸困难,这可能由气管狭窄(肿瘤复发)、肺部病变或放疗后肺纤维化等引起,活动或静息时气短、喘息需进一步检查;其次进行体格检查,包括颈部及淋巴结检查;再次关注血液检查结果,如血常规、血液生化和肿瘤标志物检查等;最后关注影像学检查结果,如喉部CT、气管镜和颈部软组织MRI。

综上所述,气管腺样囊性癌是一种罕见的气管肿瘤,其临床表现缺乏特异性,诊断主要依靠影像

学和病理学检查。治疗方法包括手术治疗、放疗和化疗等。但目前对放疗可能造成SPM的理解仍不深入,因而临床医生在为患者选择放疗方案时应更加谨慎地评估收益与风险。未来,随着医学技术的不断进步和对该疾病认识的不断深入,有望为TACC患者提供更加有效的治疗方法和更好的预后。同时,研究者也需要进一步加强对该疾病的研究,提高临床医生对其认识和诊治水平,以减少误诊和漏诊,为患者的健康提供更好的保障。

利益冲突声明:

所有作者声明不存在利益冲突。

作者贡献声明:

王璐瑶参与研究整体设计和论文撰写,赵晨曦参与临床资料的收集及整理,张婉泽和刘林林参与论文审校及修改。

[参考文献]

- [1] KANEMATSU T, YOHENA T, UEHARA T, et al. Treatment outcome of resected and nonresected primary adenoid cystic carcinoma of the lung [J]. *Ann Thorac Cardiovasc Surg*, 2002, 8(2): 74-77.
- [2] NICOLINI E M, MONTESSI J, VIEIRA J P, et al. Adenoid cystic carcinoma of the trachea: a case report [J]. *Am J Case Rep*, 2019, 20: 1373-1377.
- [3] WU J H, TAO Y, LIU Y, et al. 18F-FDG PET/CT of primary tracheal adenoid cystic carcinoma [J]. *Clin Nucl Med*, 2021, 46(9): 766-767.
- [4] HONINGS J, GAISSERT H A, VAN DER HEIJDEN H F, et al. Clinical aspects and treatment of primary tracheal malignancies [J]. *Acta Otolaryngol*, 2010, 130(7): 763-772.
- [5] KEEGAN T H M, BLEYER A, ROSENBERG A S, et al. Second primary malignant neoplasms and survival in adolescent and young adult cancer survivors [J]. *JAMA Oncol*, 2017, 3(11): 1554-1557.
- [6] PU X X, XU Q W, LIU B Y. TACC diagnosed by transoesophageal endoscopic ultrasonography: a case report [J]. *World J Clin Cases*, 2023, 11(16): 3847-3851.
- [7] PINO R M, RILEY L E. Critical tracheal stenosis from adenoid cystic carcinoma during pregnancy: case report [J]. *J Clin Anesth*, 2022, 77: 110620.
- [8] MADARIAGA M L L, GAISSERT H A. Overview of malignant tracheal tumors [J]. *Ann Cardiothorac Surg*, 2018, 7(2): 244-254.
- [9] MAJEED F A, ZAFAR U, ALI A, et al. Emergency tracheal surgery for adenoid cystic carcinoma: a rare

- entity[J]. *J Coll Physicians Surg Pak*, 2018, 28(11): 882-884.
- [10] LUO M Y, DUAN C J, QIU J P, et al. Diagnostic value of multidetector CT and its multiplanar reformation, volume rendering and virtual bronchoscopy postprocessing techniques for primary trachea and main bronchus tumors[J]. *PLoS One*, 2015, 10(9): e0137329.
- [11] WANG S C, YIN L K, ZHANG Y, et al. CT diagnosis and prognosis prediction of tracheal adenoid cystic carcinoma[J]. *Eur J Radiol*, 2021, 140: 109746.
- [12] SWEENEY L, VERNIMMEN F, SINSKE S. MRI of a recurrent adenoid cystic carcinoma of the trachea, treated with fast neutron therapy [J]. *BJR Case Rep*, 2016, 2(2): 20150201.
- [13] SANDACH P, SEIFERT R, SLAMA A, et al. Histological validation of FDG and PSMA-targeted PET/CT imaging in a rare tracheal adenoid cystic carcinoma[J]. *Clin Nucl Med*, 2023, 48(1): e16-e18.
- [14] HÖGERLE B A, LASITSCHKA F, MULEY T, et al. Primary adenoid cystic carcinoma of the trachea: clinical outcome of 38 patients after interdisciplinary treatment in a single institution[J]. *Radiat Oncol*, 2019, 14(1): 117.
- [15] YANG H T, YAO F, TANTAI J C, et al. Resected tracheal adenoid cystic carcinoma: improvements in outcome at a single institution [J]. *Ann Thorac Surg*, 2016, 101(1): 294-300.
- [16] SPINELLI G P, MIELE E, PRETE A A, et al. Combined surgery and radiotherapy as curative treatment for tracheal adenoid cystic carcinoma: a case report[J]. *J Med Case Rep*, 2019, 13(1): 52.
- [17] BHATTASALI O, HOLLIDAY E, KIES M S, et al. Definitive proton radiation therapy and concurrent cisplatin for unresectable head and neck adenoid cystic carcinoma: a series of 9 cases and a critical review of the literature[J]. *Head Neck*, 2016, 38(Suppl 1): E1472-E1480.
- [18] AIMAN A, ZAHIR Z, MAKHDOOMI R, et al. Primary pulmonary adenoid cystic carcinoma-clinicopathological features and predictors of poor outcome[J]. *Lung India*, 2023, 40(3): 222-226.
- [19] HUO Z, MENG Y X, WU H W, et al. Adenoid cystic carcinoma of the tracheobronchial tree: clinicopathologic and immunohistochemical studies of 21 cases [J]. *Int J Clin Exp Pathol*, 2014, 7(11): 7527-7535.