

·儿童罕见病·

甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌的诊断与治疗



全文二维码 开放科学码

吴晓娟 易斌 王小林 冯杰雄

【摘要】目的 对甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌患儿的临床资料进行分析,总结此类少见疾病的诊断及处理方式。**方法** 2013年1月至2017年2月华中科技大学同济医学院附属同济医院共收治3例甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌患者,均为女性,年龄分别为27岁(患者1)、53岁(患者2)、9岁(患者3),均以颈部或颌下囊实性包块为主要症状就诊。其中1例在术前通过细针穿刺诊断为甲状腺乳头状癌,经术中冰冻切片再次确诊,行双侧甲状腺全切术;其他2例首次手术仅行包块切除,术后病理检查结果提示恶性病变,分别行双侧甲状腺切除和(或)双侧淋巴结清扫术。术后行¹³¹I治疗。

结果 3例均顺利完成一次或多次手术,术中无输血,术后7天内出院。患者1及患者2分别随访5年、4年,随访期间无症状存活,无复发;通过甲状腺素的补充,甲状腺激素水平正常。患者3术后2个月出现肺部多发小结节,不排除转移,后行¹³¹I治疗,3个月后复查无明显病灶。**结论** 甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌患者行甲状腺全切术效果理想,术后¹³¹I治疗可减少复发,补充外源性甲状腺素可维持激素水平及儿童患者的生长发育。

【关键词】 甲状舌管囊肿; 乳头状, 癌; 甲状腺; 甲状腺切除术; 儿童

【中图分类号】 R726 R581 R730.261

Diagnosis and treatment strategies for thyroglossal duct cyst plus papillary thyroid carcinoma. Wu Xiaojuan, Yi Bin, Wang Xiaolin, Feng Jiexiong. Department of Pediatric Surgery, Affiliated Tongji Hospital, Tongji Medical College, Huazhong University of Science & Technology, Wuhan China. Corresponding author: Feng Jiexiong, Email: fengjiexiong@126.com

【Abstract】Objective To analyze the clinical profiles of thyroglossal duct cyst with thyroid papillary carcinoma and explore the diagnostics and therapeutics of this rare disease. **Methods** Three girls were aged 27, 53 and 9 years respectively. The major symptoms were cervical or submental cystic mass. One patient was diagnosed preoperatively as papillary thyroid cancer by fine needle puncture and bilateral total thyroidectomy was performed after a confirmation of intraoperative frozen section. Another two patients underwent mass resection alone initially. Postoperative pathological examination revealed malignant lesions and bilateral thyroidectomy and/or bilateral lymphadenectomy were performed. Postoperative treatment of iodine ¹³¹I was offered.

Results All operations were completed successfully without blood transfusion. All children were discharged within 7 days post-operation. Children 1 and 2 survived asymptotically for 5 and 4 years without recurrence.

Thyroxine supplementation normalized the levels of thyroid hormone. Patient 3 had multiple pulmonary nodules in 2 months after operation. After a treatment of ¹³¹I, no obvious lesions were found within 3 months. **Conclusion** Bilateral total thyroidectomy is effective for children with thyroglossal duct cyst with thyroid papillary carcinoma. Postoperative ¹³¹I therapy reduces recurrence. Supplementation of exogenous thyroxine may maintain hormone levels and promote the growth and development.

【Key words】 Thyroglossal Cyst; Carcinoma, Papillary; Thyroid Gland; Thyroidectomy; Child

DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.05.015

基金项目:国家自然科学基金青年基金(编号:81500395)

作者单位:华中科技大学同济医学院附属同济医院小儿外科(湖北省武汉市,430032)

通信作者:冯杰雄,Email:fengjiexiong@126.com

甲状舌管囊肿是小儿常见疾病,以颈前包块为主要症状,常见的临床表现为颈前皮下囊肿,术前主要依靠B超进行诊断,同时检查双侧甲状腺,排除异位甲状腺。但甲状舌管囊肿癌变的病例非常少见,儿童甲状舌管囊肿癌变则更为罕见。自1911

年 Bretano 等报道了第 1 例甲状舌管囊肿癌变病例以来,迄今为止文献报道的病例数约 270 例,儿童不超过 10 例^[1]。由于没有大宗病例资料,临床上对甲状舌管癌变的发病机制及手术范围仍存在较大争议。目前认为,90% 的癌变来源于甲状舌管残留的甲状腺组织,为乳头状癌。甲状舌管囊肿、瘻管,部分舌骨切除以及甲状腺全切为根治甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌的基本术式,如果合并淋巴结转移,则需要行区域颈部淋巴结清扫术。本文就 2013 年 1 月至 2017 年 2 月华中科技大学同济医学院附属同济医院收治的 3 例甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌患者的临床资料进行总结,现报告如下。

材料与方 法

一、一般资料

患者 1,女,27 岁,颈下包块 10 余年,2013 年 1 月于本院口腔科就诊。专科检查结果:颈下可触及大小约 2 cm × 1.5 cm 的皮下包块,活动度差,边界尚清楚,无触痛,甲状腺稍增大,未扪及明显包块;患者 2,女,53 岁,因颈部囊肿 40 余年,增大 1 年于 2014 年 6 月入住本院甲乳外科,专科检查结果:体温 36.9℃,脉搏 83 次/分,呼吸 24 次/分,血压 130/68 mmHg,颈部可触及一囊性包块,位于甲状腺上方,大小约 2 cm × 2 cm,为实质性,甲状腺触诊无增大及包块,双侧颈部可触及多个淋巴结,最大者约蚕豆大小,较固定;患者 3,女,9 岁 4 个月,颈下包块 4 年余,于 2017 年 2 月入住本院小儿外科,专科检查结果:生长发育正常,颈下可及一大小约 1.5 cm × 1.5 cm 的囊实性包块,边界尚清,较固定,双侧颈部可及多个淋巴结,光滑,可活动。

二、辅助检查

患者 1:WBC 为 5.5×10^9 个/L,Hb 为 105 g/L,FT3 为 4.4 pmol/L,FT4 为 20.2 pmol/L,TSH 为 4.5 mU/L;B 超提示双侧甲状腺正常,颈下探及一囊实性包块,大小约 2 cm × 1.8 cm,可见血流信号。患者 2:WBC 为 3.5×10^9 个/L,Hb 为 92 g/L,FT3 为

6.2 pmol/L,FT4 为 16.7 pmol/L,TSH 为 2.4 mU/L;B 超提示颈部颌下囊实性包块,大小约 2.2 cm × 2 cm,血流丰富,甲状腺未见异常,双侧淋巴结增多,行 CT 检查提示双侧颈部有淋巴结增大。行淋巴结穿刺活检提示甲状腺癌转移。患者 3:WBC 为 7.3×10^9 个/L,Hb 为 110 g/L,PLT 为 354×10^9 个/L,PT 为 23.3 s,APTT 为 45.5 s。B 超提示颈部实质性包块,大小约 2.5 cm × 2 cm,血流丰富。

三、手术治疗及术后病检

患者 1 在第一次手术中仅行甲状舌管囊肿切除,术后病理检查提示甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌,术后行¹³¹I 检测,提示甲状腺结节,术后 1 周行双侧甲状腺全切加中央区淋巴结清扫,术后病理检查提示:甲状腺微小乳头状癌,无淋巴结转移。患者 2 行术中冰冻切片,提示乳头状癌可能,遂行双侧甲状腺全切,根据术前检查结果,同时行中央区及Ⅳ区淋巴结清扫。术后病理检查提示:甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌,双侧甲状腺微小乳头状癌,淋巴结转移。患者 3 第 1 次手术仅行甲状舌管囊肿切除术(图 1A),术后病理检查提示甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌。患者 3 术后因双侧淋巴结肿大行穿刺提示转移性甲状腺乳头状癌,颈部 CT 提示上颈部正中小片强化灶,颈部多发肿大淋巴结(图 1B),胸部 CT 未见明显异常。再次手术行双侧甲状腺切除 + 双侧颈部淋巴结清扫术(中央区 + Ⅱ - Ⅳ区);术后病理检查:甲状腺乳头状癌,左/右侧淋巴结转移(4/66,1/32,图 1C)。

四、¹³¹I 治疗

患者 1 术后 6 周行¹³¹I 治疗一次,剂量为 3.7 GBq。患者 2 术后 1 个月行¹³¹I 治疗,分别于术后 3 个月、6 个月再次治疗,剂量均为 3.7 GBq。患者 3 术后 2 个月行¹³¹I 治疗,2 个月后复查肺部有转移灶,再行 2 次¹³¹I 治疗。

五、随访

3 例均随访至 2018 年 9 月,随访内容包括颈部 B 超、胸部 CT、甲状腺功能及身高发育情况。



图 1 患者 3(儿童病例)的临床资料 A:第 1 次手术切下的组织,为囊实性包块,质地偏硬;B:CT 提示颈部淋巴结肿大并边缘强化;C:甲状腺乳头状癌并淋巴结转移

Fig. 1 Clinical profiles of child case No. 3

结果

3例患者多次手术均顺利完成,术中无输血,术后7天内出院,随访结局均为存活。患者1及患者2在随访的5年及4年期间无症状,无复发,颈部B超及胸部CT提示无复发及转移。患者3在

术后2个月出现肺部多发小结节,不排除转移,后行¹³¹I治疗,3个月后复查无明显病灶。由于还在生长发育期间,对该患者进行了外源性激素的补充,目前随访18个月,患儿身高、体重的增长幅度均在正常范围。术后在外源性甲状腺素补充下,3例患者甲状腺素维持在正常水平,各指标变化趋势见下图(图2)。

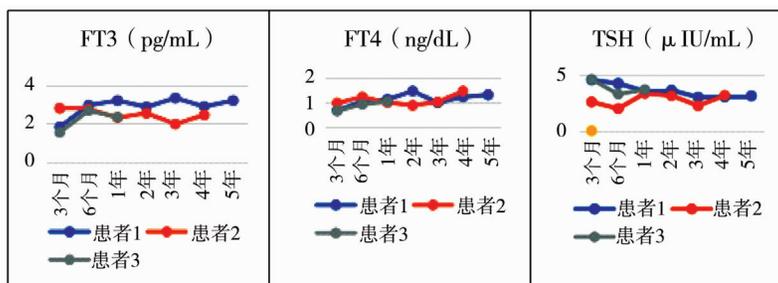


图2 3例患者术后不同时期 FT3、FT4、TSH 水平变化趋势

Fig.2 The change trends of the levels of FT3, FT4 and TSH at different postoperative phases in 3 children

讨论

甲状舌管囊肿的本质是甲状舌管在胚胎期未完全消退的残留瘘管,并在远端形成囊肿^[2,3]。瘘管及囊肿覆有上皮细胞,有时可见甲状腺组织,这部分组织可发生癌变,成为甲状腺乳头状癌。甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌非常少见,仅占有甲状舌管囊肿患者的1%~1.5%,多发生于成人^[4-7]。Dzodic等^[8]报告12例患者诊断治疗的平均年龄为40.6岁(27~63岁),小儿罕见。目前有文献报告,7%~25%甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌患者合并中央组淋巴结转移,1.3%合并远处转移^[9]。

甲状舌管囊肿合并癌变的临床表现缺乏特异性,主要表现为颈前囊实性包块,未合并感染时无疼痛,术前不易鉴别良恶性^[10]。特别是儿童患者,甲状舌管囊肿是很常见的疾病,术前常规仅做B超了解囊肿的性质,同时了解甲状腺情况。本组病例中仅病例2能在术前诊断为癌变,是因为术前CT检查发现颈部淋巴结肿大,行细针穿刺活检发现为甲状腺癌并淋巴结转移。而其余2例都是通过术后病理检查才证实为恶性病变,术前并无特异性表现。对于发病时间较长的颈前囊肿,囊肿突然增大时一定要引起重视,除了B超,必要时可行CT或MRI检查,有文献报道甲状舌管囊肿合并癌变时CT及MRI可表现为多方囊性改变,如果出现以上表

现,要考虑甲状舌管囊肿癌变可能^[11-13]。细针穿刺活检对病变的诊断有一定的帮助,但对于囊性病变的诊断率并不高,因为囊液中的癌细胞较少^[14]。对可疑病例,术中需冰冻快速切片了解病变性质,对确定手术的方式及范围有较大的帮助。

甲状舌管囊肿合并癌变的预后较好,影响其预后的主要因素是手术范围,行单纯癌变囊肿切除患者的10年生存率远低于行甲状腺切除及淋巴结清扫的患者^[15,16]。此外,清除的淋巴结范围也是影响预后的一个重要因素,I区淋巴结清扫是最基本的,如果原位甲状腺有癌组织,需行II~IV区淋巴结清扫。术后¹³¹I放疗以及甲状腺素的补充则属于常规治疗。

对于儿童来讲,甲状舌管囊肿常见,但合并甲状腺乳头状癌非常罕见,对其治疗仅有个别文献报告^[16]。本组中的儿童病例为一9岁女性患儿,在确诊甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌后出现颈部淋巴结肿大,行颈部淋巴结穿刺提示甲状腺癌转移。针对其特殊性,本院多个相关科室(包括成人甲状腺乳腺外科、小儿外科、小儿内分泌科以及核医学科等)专家对“围手术期以及术后内分泌功能是否影响患儿生长发育”这一问题进行了充分讨论,考虑到术后患儿甲状腺激素水平对其生长发育的影响,最终选择单侧还是双侧颈部淋巴结清扫、是否行甲状腺全切术等方面存在较多顾虑,最终考虑还是以疗效为主,拟定了甲状腺全切及双侧颈部淋巴结清扫的手术方式,手术过程及术后恢复均非常顺利。术后病理检查也证实甲状腺存在微小病灶,双侧淋巴

结转移。术后行¹³¹I 放疗,补充甲状腺素,患儿无甲状腺功能低下症状,生长发育正常。此病例的诊治过程说明,儿童甲状舌管囊肿并癌变的处理方式可借鉴成人,同样可取得很好的手术效果,术后外源性补充甲状腺素至正常水平不会对患儿的生长发育产生较大影响。Gomi^[7]提出儿童患者术后¹³¹I 的治疗以及外源性甲状腺素的补充是必要的。

对于儿童患者,甲状舌管囊肿合并甲状腺癌的处理方式与成人患者相似,如果术前穿刺提示正常甲状腺组织或淋巴结有癌组织,手术切除的范围应该包括双侧甲状腺及清扫双侧颈部淋巴结。术后常规行¹³¹I 放射治疗,能降低肿瘤复发率;同时应补充外源性甲状腺素,并监测 T3、T4 水平及生长发育情况。

参考文献

- Rathod JK, Rathod SJ, Kadam V. Papillary carcinoma of thyroid in a thyroglossal cyst [J]. J Oral Maxillofac Pathol, 2018, 22(4):98. DOI:10.4103/jomfp.JOMFP_173_16.
- Choi YM, Kim TY, Song DE, et al. Papillary thyroid carcinoma arising from a thyroglossal duct cyst: a single institution experience [J]. Endocr J, 2013, 60(5):665-670. DOI:10.1507/endocrj. EJ12-0366.
- Thompson LD, Herrera HB, Lau SK. A Clinicopathologic Series of 685 Thyroglossal Duct Remnant Cysts [J]. Head Neck Pathol, 2016, 10(4):465-474. DOI:10.1007/s12105-016-0724-7.
- Rossi ED, Martini M, Straccia P, et al. Thyroglossal duct cyst cancer most likely arises from a thyroid gland remnant [J]. Virchows Arch, 2014, 465(1):67-72. DOI:10.1007/s00428-014-1583-9.
- Hassan MJ, Rana S, Khan S, et al. An Incidental Primary Papillary Carcinoma Arising in a Thyroglossal Duct Cyst: Report of a Rare Finding [J]. J Lab Physicians, 2016, 8(1):62-64. DOI:10.4103/0974-2727.176236.
- Thompson L, Herrera HB, Lau SK. Thyroglossal Duct Cyst Carcinomas in Pediatric Patients: Report of Two Cases with a Comprehensive Literature Review [J]. Head Neck Pathol, 2017, 11(4):442-449. DOI:10.1007/s12105-017-0807-0.
- Albayrak Y, Albayrak F, Kaya Z, et al. A case of papillary carcinoma in a thyroglossal cyst without a carcinoma in the thyroid gland [J]. Diagn Cytopathol, 2011, 39(1):38-41. DOI:10.1002/dc.21356.
- Dzodic R, Buta M, Markovic I, et al. Surgical management of well-differentiated thyroid carcinoma in children and adolescents: 33 years of experience of a single institution in Serbia [J]. Endocr J, 2014, 61(11):1079-1086. DOI:10.1507/endocrj.ej14-0226.
- Palomino MB, Beristain HJ, Piscil SM, et al. Thyroglossal cyst as primary site of papillary thyroid carcinoma metastatic to jugular lymph node chain [J]. Endocrinol Nutr, 2014, 61(3):e11-e12. DOI:10.1016/j.endonu.2013.10.005.
- 王勤学. 儿童甲状舌管囊肿的诊断及治疗 [J]. 山西医药杂志, 2018, 47(7):777-778. DOI:10.3969/j.issn.0253-9926.2018.07.016.
Wang QX. Diagnosis and Treatment of Thyroglossal Tongue Cyst in Children [J]. Shanxi Medical Journal, 2018, 47(7):777-778. DOI:10.3969/j.issn.0253-9926.2018.07.016.
- 徐小方, 于开涛, 葛成, 等. 甲状舌管乳头状癌 1 例及文献复习 [J]. 口腔颌面外科杂志, 2014, 24(6):475-478. DOI:10.3969/j.issn.1005-4979.2014.06.27.
Xu XF, Yu KT, Ge C, et al. Thyroid Papillary Carcinoma Arising in Thyroglossal Duct Cyst: Case Report and Review of Literature [J]. Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, 2014, 24(6):475-478. DOI:10.3969/j.issn.1005-4979.2014.06.27.
- Chu YC, Han JY, Han HS, et al. Primary papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst [J]. Yonsei Med J, 1997, 163(2):143. DOI:10.3349/ymj.2002.43.3.381.
- Gaddikeri S, Chapman PR. Radiology quiz case 2: papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst (TGDC) [J]. JAMA Otolaryngol Head Neck Surg, 2013, 139(1):95-96. DOI:10.1001/jamaoto.2013.1159a.
- Yang YJ, Haghiri S, Wanamaker JR, et al. Diagnosis of papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst by fine-needle aspiration biopsy [J]. Arch Pathol Lab Med, 2000, 124(1):139-142. DOI:10.1043/0003-9985(2000)124<0139:DOPCIA>2.0.CO;2.
- Diaconescu MR, Costea I, Glod M, et al. Thyroglossal Duct Cyst Carcinoma in Child and Adult. Two Case Reports [J]. Chirurgia (Bucur), 2015, 110(6):550-553.
- Pfeiffer MS, Kim GH, Krishnan M. Thyroglossal duct papillary carcinoma in a 15-year old female and review of pediatric cases of thyroglossal duct carcinoma [J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2014, 78(1):135-138. DOI:10.1016/j.ijporl.2013.10.013.

(收稿日期:2018-11-08)

本文引用格式: 吴晓娟, 易斌, 王小林, 等. 甲状舌管囊肿合并甲状腺乳头状癌的诊断与治疗 [J]. 临床小儿外科杂志, 2020, 19(5):451-454. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.05.015.

Citing this article as: Wu XJ, Yi B, Wang XL, et al. Diagnosis and treatment strategies for thyroglossal duct cyst plus papillary thyroid carcinoma [J]. J Clin Ped Sur, 2020, 19(5):451-454. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.05.015.