

# 甲状舌管癌的临床特征

朱莹莹<sup>1</sup> 赵大春<sup>2</sup> 陈兴明<sup>1</sup> 刘子文<sup>3</sup> 郭颖<sup>1</sup> 高志强<sup>1</sup>

**[摘要]** 目的:总结甲状舌管癌的临床特征及治疗方法。方法:回顾性分析北京协和医院收治的 160 例甲状舌管病变患者的临床资料,并检索相关文献。结果:160 例患者中,甲状舌管癌 3 例(1.88%)。3 例均采用手术治疗彻底切除病变,术后病理确诊为甲状舌管乳头状癌。其中 1 例伴有颈部淋巴结肿大,同期行颈淋巴清扫术并证实为转移癌,术后采用 I<sup>131</sup> 治疗。分别随访 2、10 和 14 年未见复发或转移。结论:甲状舌管癌发病率极低,诊断需通过病理检查明确,治疗原则首选手术切除,必要时同期行颈淋巴清扫术。

**[关键词]** 甲状舌管;乳头状癌;诊断;治疗

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2015.02.008

**[中图分类号]** R739.91 **[文献标志码]** A

## Clinical features of thyroglossal duct carcinoma

ZHU Yingying<sup>1</sup> ZHAO Dachun<sup>2</sup> CHEN Xingming<sup>1</sup>  
LIU Ziwen<sup>3</sup> GUO Ying<sup>1</sup> GAO Zhiqiang<sup>1</sup>

(<sup>1</sup>Department of Otolaryngology, Peking Union Medical College Hospital, Chinese Academy of Medical Sciences, Peking Union Medical College, Beijing, 100730, China; <sup>2</sup>Department of Pathology, Peking Union Medical College Hospital, Chinese Academy of Medical Sciences, Peking Union Medical College; <sup>3</sup>Department of Surgery, Peking Union Medical College Hospital, Chinese Academy of Medical Sciences, Peking Union Medical College)

Corresponding author: CHEN Xingming, E-mail: xingming.chen@hotmail.com

**Abstract Objective:** To analyze the clinicopathological features, treatments, and prognosis of patients with papillary TDCa. **Method:** A retrospective study was conducted of the medical records of our hospital for cases of TDCa. General clinical information including diagnostic criteria and treatments was obtained and analyzed. A literature review was also conducted. **Result:** There were 160 cases of thyroglossal duct anomalies hospitalized in Peking Union Medical College Hospital in the past 20 years, and TDCa was diagnosed in 3 (1.88%) cases. All 3 cases underwent local radical resections, and papillary TDCa was diagnosed based on the pathology examination. Selective neck dissection was chosen in one which was confirmed with cervical lymphatic metastasis. All patients were followed up with no recurrences or metastasis. **Conclusion:** The incidence of TDCa is very low and the pathology examination is the only way to confirm the diagnosis. Surgery, especially Sistrunk's procedure, is the treatment of choice, with low complications and recurrence. In the presence of cervical lymphadenopathy, selective neck dissection should be considered.

**Key words** thyroglossal duct; papillary carcinoma; diagnosis; treatment

甲状舌管癌(thyroglossal duct carcinoma, TDCa)是原发于甲状舌管残迹的一种恶性肿瘤,其发病率极低,大约占甲状舌管病变的 1%<sup>[1]</sup>。自 1911 年 Brentano 等首次报道以来,至今全世界仅有 300 余例报道,且以个案报道为主。本研究对我院近 20 年来收治的 3 例 TDCa 患者的临床资料进行回顾性分析,并结合相关文献对其临床特征进行讨论。

### 1 资料与方法

#### 1.1 临床资料

收集并统计 1993-07—2013-06 期间在北京协

和医院收治的甲状舌管来源病变 160 例,其中术后病理确诊 TDCa 3 例,均为男性;年龄 35~46 岁,中位年龄 45.0 岁;病程 6 个月~5 年。

#### 1.2 治疗方法

所有患者均行颈部超声或影像学检查明确病变位置,必要时行甲状腺核素扫描确定存在正常甲状腺组织。治疗方法主要采取 Sistrunk 手术,即将肿物、甲状舌管及部分舌骨一并切除<sup>[2]</sup>。随访信息来源于住院、门诊病历及电话随访资料,随访时间自确诊之日开始,末次随访日期为 2013 年 12 月 31 日。

### 2 结果

本研究中 3 例患者病变均位于颈前舌骨下,临床症状均表现为颈前无痛性包块。其中 2 例患者行 Sistrunk 手术,术后均诊断为甲状舌管乳头状

<sup>1</sup> 中国医学科学院 北京协和医学院 北京协和医院耳鼻咽喉科(北京,100730)

<sup>2</sup> 中国医学科学院 北京协和医学院 北京协和医院病理科

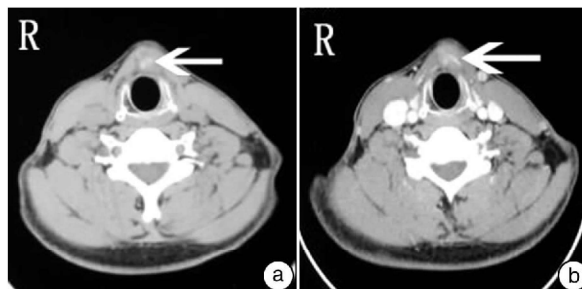
<sup>3</sup> 中国医学科学院 北京协和医学院 北京协和医院基本外科  
通信作者:陈兴明, E-mail: xingming.chen@hotmail.com

癌,分别随访 10 年和 14 年无复发或转移;另 1 例患者因双侧颈部淋巴结异常,行 Sistrunk 手术加双侧甲状腺全切加双侧颈淋巴清扫术,术后病理诊断为甲状舌管乳头状癌伴双侧颈部转移癌,因颈部淋巴结存在多发转移,术后行 I<sup>131</sup> 治疗 1 次,已随访 2 年无复发或转移。

### 3 典型病例

患者,男,35 岁,因“发现颈部肿物 2 年”入院。患者 2 年前偶然发现颈前肿物,无不适,肿物进行性增大。11 年前诊断甲状腺功能亢进,行 I<sup>131</sup> 治疗后甲状腺功能低下,口服左甲状腺素钠(优甲乐 100 μg,1 次/d),甲状腺功能维持在正常水平。体检:颈前可触及 4.0 cm×3.0 cm 肿物,质硬,边界尚清,无红肿或压痛,肿物可随吞咽上下活动。双侧甲状腺可触及多发结节。抽血查甲状腺功能、甲状腺球蛋白抗体(A-Tg)、甲状腺过氧化物酶抗体(A-TPO)及甲状腺球蛋白(Tg)均正常。颈部 B 超提示颈前囊实性肿物,边界清楚,密度不均;双侧颈部淋巴结肿大,部分淋巴结内见点状钙化。甲状腺核素扫描显示颈部肿物无摄碘功能,考虑非甲状腺来源;双侧甲状腺未见明显异常。颈部 CT 示颈前甲状腺上方结节,密度不均、边界清楚、可见钙化,增强后肿物有不均匀强化(图 1)。入院后完善术前检查,行颈部肿物活检,病理检查示(甲状舌管)乳头状癌。经多科会诊,考虑双侧甲状腺存在多发结节,而甲状腺经碘 131 治疗后已基本无功能,且双侧颈部淋巴结异常,不排除伴颈部淋巴结转移的可能,经患者同意,最终行 TDCa 根治性切除加双侧甲状腺全切加双侧颈淋巴清扫术。术后病理:甲状舌管乳头状癌,可见典型甲状腺乳头状癌分支乳头结构,毛玻璃样核及核沟。免疫组织化学检查示甲状腺蛋白(thyroid protein, THY)、甲状腺转录因子-1(thyroid transcription factor-1, TTF-1)和乳糖凝集素(Galectin-3)等抗体呈阳性(图 2)。双侧颈部多个淋巴结呈转移性乳头状腺癌(左侧 1/15,右侧 2/34,转移灶均位于 VI 区)。双侧结节性甲状腺肿,未见癌。术后再行 I<sup>131</sup> 治疗 1 次,总

剂量 30 mCi,至今随访已 2 年,无复发或转移。



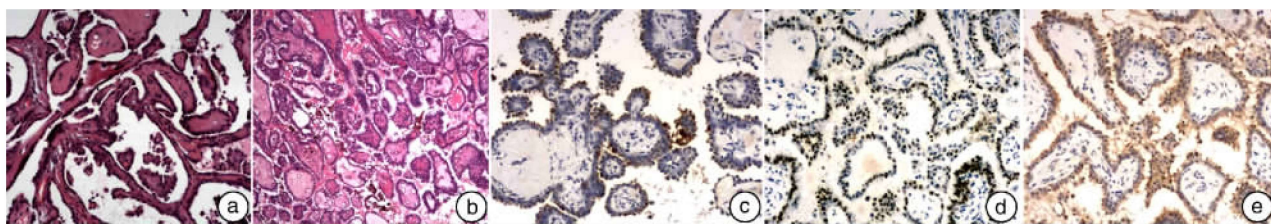
a:颈部 CT 示喉前肿物,边界清楚,密度不均,可见轻度钙化(箭头所示);b:增强 CT 可见肿物略有不均匀强化(箭头所示)。

图 1 颈部 CT 所见

### 4 讨论

胚胎期甲状腺始基由口底向颈部逐渐生长,甲状舌管一般在 6 周左右自行闭锁,远端发育形成甲状腺;甲状舌管退化不全可形成甲状舌管囊肿<sup>[3]</sup>。残留的甲状舌管上皮约 1% 可发生癌变,形成 TD-Ca<sup>[4]</sup>。本院 160 例甲状舌管来源病变中 3 例为 TD-Ca,占 1.88%,其发病率与大多数文献报道接近。TDCa 的平均发病年龄为 40~60 岁,男女发病比例为 1.0:1.5<sup>[5]</sup>。据文献报道 TDCa 的组织学类型以乳头状腺癌最常见,占 80% 以上,其他还有乳头/滤泡混合性癌、鳞状细胞癌、滤泡状癌、未分化癌和许特尔细胞癌等<sup>[6]</sup>。本组 3 例均为乳头状癌。

TDCa 的来源目前尚存在争议,主要有 2 种理论。其一是原发癌理论<sup>[6]</sup>,有研究显示 62% 的 TDCa 病理检查可发现异常甲状腺组织,且所有 TDCa 中未发现髓样癌,这可能是由于异位甲状腺组织缺乏滤泡旁组织,所以不会发生髓样癌。其二是转移癌理论<sup>[7]</sup>,该理论认为 TDCa 是从原发甲状腺癌转移而来,甲状舌管可能是甲状腺癌扩散的自然导管。另外,基于甲状舌管的胚胎学特征,TDCa 和甲状腺癌可相互播散<sup>[8]</sup>。本组中 1 例患者同期行甲状腺全切,未发现存在甲状腺癌;另 2 例未行甲状腺切除,随访多年均无复发,支持原发癌理论。



a:典型甲状腺乳头状癌分支乳头结构(苏木精-伊红染色,×60);b:毛玻璃样核及核沟(苏木精-伊红染色,×150);c:甲状腺蛋白(苏木精-伊红染色,×150);d:甲状腺转录因子-1(苏木精-伊红染色,×150);e:乳糖凝集素(苏木精-伊红染色,×150)。

图 2 甲状舌管乳头状癌病理表现及甲状腺乳头状癌特异性抗体表达

TDCa 的临床表现通常与甲状舌管囊肿相似,可发生于从舌根到甲状腺上缘的甲状舌管走行的任何部位,无症状颈部肿块是约 70% 的 TDCa 患者的唯一表现<sup>[9]</sup>,发病时间从数天到数 10 年不等。TDCa 的术前诊断极为困难,确诊有赖于病理检查。细针穿刺细胞学检测是目前最有助于术前诊断的检查方法,其准确率达 60%<sup>[10]</sup>。有学者分析 TDCa CT 或 MRI 影像结果,发现大多数 TDCa 有密度增高或增强的囊壁结节,或有不规则钙化<sup>[11]</sup>。本组 3 例患者中 1 例 CT 示肿物密度不均,增强后可见部分不规则强化。提示 CT 检查若发现密度不均、钙化,或伴增强,可作为 TDCa 的重要影像学特征。另外,本组 1 例患者术前行颈部 B 超检查发现颈部淋巴结异常,术后病理证实为淋巴结转移癌,可见颈部 B 超对 TDCa 的诊断尤其是颈部淋巴结转移情况的提示作用不可忽视。

TDCa 的治疗原则以手术为首选。最常用的方法是 Sistrunk 手术,该术式由 Sistrunk<sup>[2]</sup> 于 1920 年首次提出,强调将肿物、甲状舌管及部分舌骨一并切除。有学者建议对低危患者可以不用行甲状腺全切除,低危因素包括:年龄小于 45 岁、无放射线暴露史、临床或影像学检查发现甲状腺无异常、肿物直径小于 4 cm、无颈部淋巴结及远处转移、病理学检查切缘阴性或肿物无囊外侵犯<sup>[12]</sup>。而仅当颈部淋巴结可疑转移或出现甲状腺受累时,需行功能性或根治性颈淋巴清扫及甲状腺部分或全部切除术。本组中的典型病例术前 B 超发现颈淋巴结可疑转移,故同期进行颈淋巴清扫术,最终证实存在颈淋巴结转移,提示对可疑病例积极行颈淋巴清扫术十分必要。另外,本组病例手术资料及随访资料中均未发现甲状腺癌,提示若无明确的甲状腺影像学异常,不一定同期行甲状腺部分或全切术。

TDCa 的预后很好,对于没有侵犯包膜、没有淋巴结转移的 TDCa 治愈率可达 95%<sup>[13]</sup>。然而 TDCa 术后是否需行甲状腺素治疗、放射性碘治疗或颈部放疗,目前尚无统一标准,一般认为低危患者术后可以不行进一步治疗。本组中 1 例伴双侧颈部淋巴结多发转移的患者术后进行了放射性碘治疗,已随访 2 年,未见复发或转移;2 例病变局限于甲状舌管者仅采取了局部手术治疗,分别随访 10 年和 14 年,未见复发或转移。当然,对 TDCa 的预后判断,还需要更多的病例及更长期的随访资料。

#### 参考文献

[1] DEDIVITIS R A, GUIMARAES A V. Papillary thy-

roid carcinoma in thyroglossal duct cyst[J]. *Int Surg*, 2000, 85: 198-201.

- [2] SISTRUNK W E. The surgical treatment of cysts of the thyroglossal tract [J]. *Ann Surg*, 1920, 71: 121-122.
- [3] KAHAIRI A, AHMAD R L, WAN ISLAH L, et al. Thyroglossal duct carcinoma [J]. *Singapore Med J*, 2009, 50: e404-406.
- [4] GEOK CHIN T, MOHD SIDIK S H, MANICKAM S, et al. Papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst in a 15-year-old-girl [J]. *Int J Otorhinolaryngol*, 2007, 2: 732-735.
- [5] DORAN F, GUMURDULU D, ERGIN M, et al. Papillary carcinoma arising in a thyroglossal duct cyst: a case report and literature review [J]. *J Laryngol Otol*, 1995, 109: 1124-1127.
- [6] MOTAMED M, MCGLASHAN J A. Thyroglossal duct carcinoma [J]. *Curr Opin Otolaryngol Neck Surg*, 2004, 12: 106-109.
- [7] BALALAA N, MEGAHED M, ASHARI M A, et al. Thyroglossal duct cyst papillary carcinoma [J]. *Case Rep Oncol*, 2011, 4: 39-43.
- [8] MITSELOU A, VOUGIOUKLAKIS T G, PESCHOS D, et al. Immunohistochemical study of the expression of S100 protein, epithelial membrane antigen, cytokeratin and carcinoembryonic antigen in thyroid lesion [J]. *Anti-cancer Res*, 2002, 22: 1777-1780.
- [9] JOSEPH T J, KOMOROWSKI R A. Thyroglossal duct carcinoma [J]. *Hum Pathol*, 1975, 6: 717-729.
- [10] PATEL S G, ESCRIG M, SHAHA A R, et al. Management of well-differentiated thyroid carcinoma within a thyroglossal duct cyst [J]. *J Surg Oncol*, 2002, 79: 134-141.
- [11] GLASTONBURY C M, DAVIDSON H C, HALLER J R, et al. The CT and MR imaging features of carcinoma arising in thyroglossal duct remnants [J]. *Am J Neuroradiol*, 2000, 21: 770-774.
- [12] PLAZA C P, LOPEZ M E, CARRASCO C E, et al. Management of well-differentiated thyroglossal remnant thyroid carcinoma: time to close the debate? Report of five new cases and proposal of a definitive algorithm of treatment [J]. *Ann Surg Oncol*, 2006, 13: 745-752.
- [13] TORCIVIA A, POLLIAND C, ZIOL M, et al. Papillary carcinoma of the thyroglossal duct cyst: report of two cases [J]. *Rom J Morphol Embryol*, 2010, 51: 775-777.

(收稿日期: 2014-07-30)