

的诊断依赖于病史、体检、X 线或 CT 影像学检查、术中所见及术后病理。扁桃体结石多见于扁桃体中上极,单侧发病较双侧多见,可引起慢性扁桃体炎、扁桃体周围间隙脓肿或颈部感染,尚可误诊为扁桃体淋巴瘤、鳞状细胞癌等^[4-7]。扁桃体结石若部分裸露于扁桃体隐窝者,诊断不难;全部包埋于扁桃体黏膜下者,手指触诊扁桃体质地较硬、CT 检查可发现扁桃体软组织内有异常钙化团块有助于正确诊断,扁桃体结石所致临床症状的严重程度与结石大小无明显相关性。本例患者系智力障碍,不能准确反映病史,体检未发现有扁桃体结石显露,行鼻咽部 CT 检查时意外发现左侧扁桃体内有团块状的均匀高密度影。扁桃体结石的病理诊断应符合以下标准:①肉眼观察结石质地较硬,形态多不规则,灰白色或灰黄色;②光镜下观察满视野无细胞样结构,为无定型物质,似菌落和钙化物;电镜下观察可见结石表面为纤维样结构和钙化物。扁桃体结石确诊后首选手术治疗,需注意 2 点:①将扁桃体与结石一并切除。若行单纯扁桃体结石取出,一则结石不易彻底清除;二则可致残留的扁桃体囊袋内容纳食物残渣或异物存留,导致炎症迁延不愈。②避免扁桃体结石坠入气管。术中扁桃体结石易碎裂,若在局麻状态下取结石可坠入气

管、形成异物,严重者危及生命。本例术中扁桃体结石发生碎裂,故作者推荐行扁桃体结石手术以选择全身麻醉较为合适,包括成人。

参考文献

- [1] KANOTRA S, KANOTRA S, PAUL J. A giant tonsillolith[J]. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg, 2008, 60:277-280.
- [2] BABU B B, AVINASH TEJASVI M L, ANULEKHA AVINASH C K, et al. Tonsillolith: a panoramic radiograph presentation[J]. J Clin Diagn Res, 2013, 7: 2378-2379.
- [3] Joginder S G, Virender S, Samar Pal S Y, et al. Giant tonsillolith in a child[J]. International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology Extra, 2006, 1:19-21.
- [4] 尚建均,李国锦,罗飞. 扁桃体结石一例[J]. 中国医药指南,2012,10(20):302-303.
- [5] 马亚琳,翟明伟,姜克亮,等. 扁桃体巨大结石 1 例[J]. 山东大学耳鼻喉眼学报,2010,24(2):66-66.
- [6] 景宜琼. 扁桃体特大结石 1 例报道[J]. 贵阳医学院学报,2009,34(6):701-701.
- [7] 汤庆弟. 扁桃体巨大结石 1 例[J]. 临床耳鼻咽喉头颈外科杂志,2008,22(16):759-759.

(收稿日期:2014-08-10)

甲状舌管癌伴系统性红斑狼疮 1 例

冯嘉麟¹ 沈宇玲¹ 王家东¹

[关键词] 甲状舌管囊肿;乳头状癌;诊断;手术治疗;系统性红斑狼疮

doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2015.02.026

[中图分类号] R593.24 [文献标志码] D

Thyroglossal duct carcinoma combined with systemic lupus erythematosus: one case report

Summary Thyroglossal duct carcinoma is a malignant tumor which occurs in the thyroglossal duct cyst. The incidence of thyroglossal duct carcinoma has been reported as approximately 1%. Up to now, just about 250 cases of thyroglossal duct carcinoma have been reported in the literature, most of which are single case reports and small case series. In most cases, the diagnosis of the thyroglossal duct carcinoma is not made until the histologic examination after surgery operation. The preoperative examination such as CT or fine needle aspiration cytology can help the preoperative diagnosis. But the surgical treatment for the thyroglossal duct carcinoma is still controversial. Now we report a case of a thyroglossal duct carcinoma combined with systemic lupus erythematosus. The patient herself found an anterior neck mass in the median submental region one year ago. The preoperative CT examination suggested thyroglossal duct cyst with pouch canceration (papillary carcinoma). Then she underwent a Sistrunk procedure and level I neck dissection, and the histopathological diagnosis was thyroglossal duct carcinoma. The

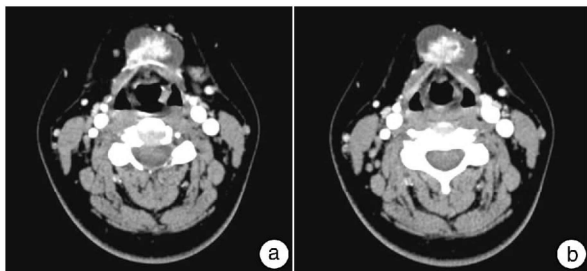
¹上海交通大学医学院附属仁济医院头颈外科(上海,200001)
通信作者:王家东, E-mail: drjiadongw@aliyun.com

patient was treated with levothyroxine therapy at suppressive dose after the surgery. Now the patient is at regular follow-up with no relapse occur.

Key words thyroglossal duct cyst; papillary carcinoma; diagnosis; operative therapy; systemic lupus erythematosus

1 病例报告

患者,女,27岁,于1年前无明显诱因下自觉颈前区肿块,无疼痛感,无呼吸困难、声音嘶哑、吞咽苦难,病程中肿块缓慢生长,患者遂至我院就诊。查体可触及颈前区舌骨水平位一4 cm×3 cm 无痛性肿块,光滑,界清,有波动感,随吞咽上下活动。双侧甲状腺区未触及明显肿块,双侧颈部也未触及明显肿大淋巴结。患者否认有颈部放射史或颈部手术史。行颈部超声检查示颈部正中舌骨水平混合回声团块,大小为38 mm×24 mm。双侧甲状腺、甲状旁腺区未见明显异常,双侧颈部未见明显肿大淋巴结。CT平扫增强检查示舌骨前方囊实性占位并双侧颌下多发淋巴结,邻近舌骨吸收改变,考虑甲状舌管囊肿伴囊内癌变(乳头状癌),肿瘤可能侵犯舌根部,舌骨(图1)。双侧甲状腺形态密度正常。行甲状腺核素扫描示双侧甲状腺显像未见明显异常。甲状腺功能(FT3、FT4、TSH、TPO-AB及TG-AB)检查均未发现异常。基于患者的临床症状,体征及影像学表现,初步诊断为甲状舌管囊肿伴囊内癌变。追问病史,患者同时伴有系统性红斑狼疮(systemic lupus erythematosus, SLE)病史13年,现服用泼尼松7.5 mg/d,控制可。



舌骨前方团块等低混杂异常密度影,增强后病灶中央呈斑片状较明显强化,呈分叶状改变。病灶向上延伸至甲状舌管盲端,向下至甲状软骨前方,后方邻近舌骨有骨质吸收改变。

图1 CT扫描图

患者入院后于2013年12月16日全身麻醉下行Sistrunk术式加Ⅰ区淋巴结清扫术,术中见肿块包膜完整,边界清晰,与周围组织无粘连,根部位于舌骨正中,部分舌骨吸收,舌根部、舌骨下肌群及咽腔未受累。切除甲状舌管新生物及全部舌骨,并行Ⅰ区淋巴结清扫术。术中探查双侧甲状腺未及明显肿块,故未对甲状腺行外科手术切除。术后冷冻病理示甲状舌管肿块纤维组织内见乳头状癌组织

浸润(最大径为3 cm)。考虑患者有多年系统性红斑狼疮病史并长期服用激素治疗,手术外在刺激有加重病情可能,故于手术当日及术后第1、2天给予氢化可的松200 mg qd 静脉滴注冲击治疗,术后第3天改为100 mg qd 静脉滴注治疗。7 d后改为泼尼松10 mg 口服治疗。

术后患者恢复良好,并予口服优甲乐1粒 QM 抑制血清TSH水平,术后1个月复查甲状腺功能示TSH为0.36 mIU/L。患者术后未行放射性¹³¹I治疗。现患者随访8个月,SLE病情控制可,无肿瘤复发,无颈淋巴结及远处转移。

2 讨论

甲状舌管囊肿是最常见的甲状腺发育异常疾病,在成人颈部肿块中,有7%为甲状舌管囊肿。绝大多数甲状舌管囊肿为良性肿块,但约有1%的甲状舌管囊肿会恶变为甲状舌管癌(thyroglossal duct carcinoma, TDCa),其中最常见类型为乳头状癌。

TDCa是发生于甲状舌管残余或甲状舌管囊肿内的一种罕见疾病。在甲状舌管囊肿中,TDCa的发病率约为1%,其中多为乳头状癌。自从1911年Brentano报道第1例以来,迄今为止仅有约250例关于TDCa的英文文献报道,并且主要为单发病例报道及小型病例分析^[1]。而国内关于TDCa的病例报道数不足10例^[2],且多为术后诊断。本病例经病理检查后也确诊为甲状舌管乳头状癌。

TDCa的临床表现多类似于甲状舌管囊肿,本例病例在体格检查时也未发现异常临床表现,故依靠术前体格检查难以确诊TDCa。术前检查如超声检查或颈部CT等可对术前诊断TDCa有一定帮助,Samara等研究了12例TDCa患者的CT影像学表现,发现有7例影像学表现为囊肿内伴有一实性结节,2例伴有钙化,1例表现为囊壁边界不规则,剩下2例无特殊影像学表现。本例病例的颈部CT影像学表现为囊肿中央呈分叶状钙化,血供较丰富,邻近舌骨吸收改变,故高度怀疑甲状舌管囊肿伴囊内癌变(乳头状癌),为首次根据术前检查疑诊为TDCa,而术后经病理检查也证实为甲状舌管乳头状癌(图1)。因此CT增强检查对术前诊断TDCa有一定的帮助,对于短期内快速生长、伴有周围受累症状、查体质地较硬,与周围组织粘连的肿块术前应行颈部增强CT检查,若CT影像学表现为囊肿内伴有实性肿块、钙化,血供丰富或囊壁侵犯周围组织时,可提示有TDCa可能。对于术前怀

疑有恶变可能的甲状舌管囊肿,还可行细针穿刺细胞学检查(FNAC)。有报道称其诊断正确率为53%~100%,也有学者建议为提高FNAC的诊断价值,可在超声引导下穿刺细胞检查。

按照Widstrom标准,诊断为TDCa需要满足以下几项诊断标准:①癌灶需位于甲状舌管囊肿中或甲状舌管部位;②囊肿壁有甲状舌管上皮残迹,少数的甲状腺滤泡,多量的柱状上皮或鳞状上皮;③在甲状腺或其他可能的原发病灶内无癌组织存在。本病例癌灶位于甲状舌管囊肿内,而颈部CT及核素扫描也提示甲状腺内和颈部其他部位无病灶存在,因此符合Widstrom标准,为甲状舌管乳头状癌。

对于甲状舌管囊肿,一般行Sistrunk术式即可,即切除囊肿、舌骨中部,并追踪切除与囊肿相连的条索组织(甲状舌管)。而对于TDCa,由于报道的病例数较少,无大规模病例统计分析,因此目前没有比较成熟的治疗指南。一般认为Sistrunk术式是最基本的治疗方式,但术后是否需行TSH抑制治疗及放射性 I^{131} 治疗还有待商榷,而对于甲状腺正常的TDCa患者,是否需加行甲状腺全切除及淋巴结清扫,目前还存在较大的争议。我们认为,对于正常的甲状腺腺体,无需行甲状腺全切除术。因为行甲状腺全切除术后患者甲状腺功能减退,并且发生喉返神经损伤及甲状旁腺功能减低的风险增加,影响患者生活质量。此外甲状腺癌的恶性程度较低,在日后的随访中若发现甲状腺癌,可再行手术治疗。而如果合并甲状腺结节,则需行甲状腺次全切除术。如果为甲状腺癌,则行患侧甲状腺全切加对侧甲状腺次全切出加淋巴结清扫术^[2-4]。因此在本病例中,患者术前CT检查即提示甲状舌管囊肿伴囊内癌变,术中行甲状舌管囊肿加舌骨切除术,术中冰冻病理检查证实为TDCa后,加行I区淋巴结清扫术。因术前检查未提示甲状腺腺体内存在病灶,术中探查双侧甲状腺也未触及明显肿块,故未对甲状腺行进一步外科手术治疗。同时本病例患者又合并有SLE病史13年,平时口服强的松治疗,病情控制可。SLE是一种常见的自身免疫性疾病,病因不明,临床变化多端,多见于年轻女性^[5]。并且,相对于正常人,SLE患者合并恶性肿瘤的风险更高,但其原因尚未完全阐明,可能与慢性炎症刺激、激素水平、基因易感性等有关^[6-7]。查阅国内外文献,本例报道为国内外首例TDCa伴SLE病例,无任何经验可供参考,因此希望本病例的报道,能为以后类似病例的治疗方案选择和围手术期处理提供临床指导意义。

因TDCa的病理特征类似于甲状腺癌,有学者建议对于单纯行Sistrunk术式的TDCa患者,通过口服甲状腺激素,应将促甲状腺激素(TSH)降至0.1~0.5 mIU/L^[2-3]。因此术后对该患者予口服优甲乐治疗,术后1个月患者复查TSH为0.36 mIU/L,控制良好。因患者无淋巴结转移证据且未行甲状腺切除术,故未对其行放射性 I^{131} 治疗。患者目前已随访8个月,无复发或转移迹象。

综上所述,TDCa是一种临床非常罕见的恶性肿瘤,其临床表现多类似于甲状舌管囊肿,术前检查如CT及FNAC等可帮助术前诊断,但最终确诊还需术后病理检查。对于甲状腺正常的病例,行Sistrunk术式加I区淋巴结清扫术足矣。而对于同时伴有SLE的患者,则应在术前和术后加大糖皮质激素的用量,防止手术加剧病情发展及术后并发症的产生。在术后治疗中,我们建议行口服优甲乐抑制血清TSH水平治疗,TSH水平控制在0.1~0.5 mIU/L为宜。术后患者应定期随访,其愈后多良好。

参考文献

- [1] YAMADA S, NOGUCHI H, NABESHIMA A, et al. Papillary carcinoma arising in thyroglossal duct cyst in the lateral neck[J]. *Pathol Res Pract*, 2013, 209:674-678.
- [2] WANG Y, JI Q, WU Y, et al. Papillary carcinoma in a thyroglossal duct remnant. Three case reports and discussion on management [J]. *G Chir*, 2011, 32: 310-315.
- [3] THARMABALA M, KANTHAN R. Incidental thyroid papillary carcinoma in a thyroglossal duct cyst-management dilemmas [J]. *Int J Surg Case Rep*, 2012, 4:58-61.
- [4] 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, 39:38-41.
- [5] LIANG J A, SUN LM, YEH J J, et al. Malignancies associated with systemic lupus erythematosus in Taiwan: a nationwide population-based cohort study[J]. *Rheumatol Int*, 2012, 32:773-778.
- [6] KISS E, KOVACS L, SZODORAY P. Malignancies in systemic lupus erythematosus [J]. *Autoimmun Rev*, 2010, 9:195-199.
- [7] CLOUTIER B T, CLARKE A E, RAMSEY-GOLDMAN R, et al. Systemic lupus erythematosus and malignancies: a review article[J]. *Rheum Dis Clin North Am*, 2014, 40:497-506.

(收稿日期:2014-08-07)