

(1):73-74.
 [6] 许振跃,洪斌,林金成.以鼻出血为主要症状的鼻腔 Rosai-Dorfman 病一例[J].中华耳鼻咽喉头颈外科杂志,2012,47(11):955-956.
 [7] PULSONI A, ANGHE L G, FALCUCCI P, et al. Treatment of sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy(rosai-dorfman disease): report of a case

and literature review[J]. Am J Hematol, 2002, 69: 67-71.
 [8] DUVAL M, NGUYEN V H, DANIEL S J. Rosai-dorfman disease;an uncommon cause of massive cervical adenopathy in a two-yearold female[J]. Otolaryngol Head Neck Surg, 2009, 140: 274-275.

(收稿日期:2016-11-17)

甲状腺炎性肌纤维母细胞瘤 1 例

张彩霞¹ 刘庚勋² 刘阳云¹ 江文¹ 曹杭¹ 陈琼¹ 常恩格¹ 张纪帅¹ 邬书本¹ 赵花香¹

[关键词] 炎性肌纤维母细胞瘤;甲状腺
 doi:10.13201/j.issn.1001-1781.2017.09.020
 [中图分类号] R739.6 [文献标志码] D

Inflammatory myofibroblastic tumour of thyroid: a case report

Summary A elderly woman patient, with a unclear boundary, solid, smooth surface, moderately active mass that estimated 0.4 cm at its greatest diameter in the left lobe of thyroid. Ultrasonography revealed a hypoechoic mass in the left lobe and Computed Tomography showed a 38 mm×25 mm×23 mm oval lesion with uniform density in the left lobe also. The surgical findings revealed tumor located in the inner side of left thyroid lobe near the isthmus, with unclear boundary. Pathological examination showed unclear boundaries between thyroid and tumor, the tumor cells attack into the muscle tissue, braided/ fascicles spindle shaped or star shaped myofibroblasts cells in the tumor area with myxedema inflammatory background and the lesion did not have any mitotic figures. Immunohistochemical analysis indicated that the spindle cells were positive for Vim, ACT, SMA, Bcl2 and ClyD1, and focal lesion histiocytes showed focal positive for CD68, CK and S-100, but negative for DES, Mgo, CD99, CD34, CD117, IgG4, ALK-1. The pathological diagnosis supports inflammatory myofibroblastic tumor of thyroid. Imaging and immunohistochemistry and others are useful in differential diagnosis.

Key words inflammatory myofibroblastic tumor; thyroid

1 病例报告

患者,女,64岁,因颈部肿物4个月于2016年5月5日入院。患者自诉2016年1月无意中触及颈前一绿豆大小肿物,除按压时稍感疼痛外无其他不适,未行处理。肿物逐渐增大,压痛较前明显,进食时伴肿物胀痛,偶有胸闷、心慌,遂来我院门诊。门诊以“甲状腺肿物性质待查(左)”收入。入院检查:甲状腺左叶内侧可扪及一个约4.0 cm×3.0 cm×2.0 cm大小肿物,质韧,表面光滑,边界欠清楚,活动差,轻压痛,无明显波动感。甲状腺功能、甲状腺过氧化物酶、抗甲状腺球蛋白抗体、癌胚抗原正常,视黄醇结合蛋白16.8 mg/L,甲状腺球蛋白500 ng/ml。外院彩超示:甲状腺左叶内侧可见低回声团块。甲状腺CT示:颈前部中线偏左侧见椭圆形占位性病变,大小约38 mm×25 mm×

23 mm,其内密度均匀,平均CT值约50 HU,与周围脂肪间隙分界不清,临近甲状腺左叶及气管受压,周围软组织内及骨质未见明显异常密度影,双侧颈动脉鞘旁可见多发小淋巴结影。经积极术前准备后于2016年5月11日行“左侧甲状腺肿物切除术加左侧甲状腺次全切除术加右侧甲状腺部分切除术”,术中见左甲状腺肿物与颈前带状肌、气管前壁及周围甲状腺组织粘连明显,分离过程中肿物囊壁破裂,可见黄色混浊液体流出,将肿物及左侧甲状腺、甲状腺峡部及颈前部分带状肌切除,并取部分右侧甲状腺组织一并切除后送冷冻病理检查,结果示结节状甲状腺肿并囊性变。术后病理学检查示甲状腺组织呈结节状甲状腺肿病理改变,部分区囊性变。甲状腺与肿瘤分界不清,瘤细胞向肌组织内侵袭,肿瘤区黏液水肿炎症性背景中,梭形或星形肌纤维母细胞呈编织状或束状排列,嗜双色的瘤细胞质丰富,核圆形或卵圆形,核仁1~2个,核分裂象少见,肿瘤间质胶原纤维增生,有浆细胞、中性粒细胞、嗜酸粒细胞、组织细胞、散在的淋巴细胞浸

¹湖南师范大学医学院第二附属医院 解放军第一六三医院耳鼻咽喉科(长沙,410003)
²湖南师范大学医学院第二附属医院 解放军第一六三医院病理科
 通信作者:刘阳云, E-mail:lyyundr@aliyun.com

润,个别区淋巴滤泡结节形成。免疫组织化学检测示:瘤细胞 Vim、ACT、SMA、Bcl-2 及 ClyD1(+),灶性区组织细胞 CD68(+),CK 和 S-100(灶+),DES、Mgo、CD99、CD34、CD117、IgG4 及 ALK-1(-)。确诊为(左侧甲状腺)炎症性肌纤维母细胞瘤(inflammatory myofibroblastic tumor, IMT);结节性甲状腺肿并囊性变。术后第1天复查甲状腺球蛋白为 500 ng/ml;甲状腺功能检查示:总甲状腺素 170.65 nmol/L,促甲状腺激素 0.17 nU/L,游离甲状腺素 27.65 pmol/L。住院期间给予“晨起顿服醋酸泼尼松片 30 mg,1次/d”,未口服左甲状腺素片,术后第8天伤口一期愈合出院。

2 讨论

IMT 是 1939 年由 Brunn 首次报道的一种少见的间叶性肿瘤,发生于甲状腺者极为罕见,临床上对其认识还不够充分,极易漏诊或误诊。IMT 是由肌纤维母细胞性梭形细胞和浆细胞、淋巴细胞和嗜酸粒细胞炎症细胞浸润组成的,多见于肺、肝及胃肠内脏器官和软组织,也可以发生在任何解剖位置。IMT 有许多别称,包括浆细胞肉芽肿(plasma cell granuloma, PCG),炎性假瘤(inflammatory pseudo tumor, IPT)等,并且在大多数期刊中同义替换^[1],但也有文献认为 IPT 与 IMT 不是同一种病^[2-6]。

IMT 发病可能与年龄及性别有关。文献报道的 21 例甲状腺 IMT/PCG 中有 16 例女性,平均 52 岁(18~89 岁)^[1],本例患者为 64 岁女性。IMT 的具体发病机制尚不清楚,可能与过敏、免疫失调和感染有关^[3]。本例患者有甲状腺肿,病灶有炎症细胞浸润,实验室检查结果显示视黄醇结合蛋白下降以及甲状腺球蛋白显著增高,均提示其病因可能与炎症感染或慢性炎症刺激有关。也有学者认为 IMT 发病可能与 ALK 遗传学说有关。ALK 蛋白的表达本质上可以作为 ALK 位于染色体 2p23 上易位的标识,排除炎症纤维细胞增生,支持 IMT 具有间叶性肿瘤潜能的观点。36%~60%的肺外 IMT 中 ALK 基因重组已证实其肿瘤源性,然而,文献报道甲状腺 IMT 中的 ALK 表达均为阴性^[5],本例患者 ALK 表达也是阴性,这说明甲状腺 IMT 是反应炎性而非真正的肿瘤病变。

关于 IMT 的病理分型,目前多采用 Coffin 的分型方法:①黏液(血管)型;②梭形细胞密集型;③少细胞纤维型:瘤细胞稀疏,密集的胶原纤维之间有大量浆细胞和淋巴细胞浸润。研究认为甲状腺 IMT 病理类型不同于其他部位的 IMT,大多数以淋巴细胞、浆细胞不同程度浸润嵌入纤维间质中为主^[3,6],也有少数以纤维组织细胞增生为主^[3-5]。本

例可见肿瘤间质胶原纤维增生,有各种炎症细胞浸润,这种特殊的病灶不同于许多非肿瘤或以梭形细胞增生为主的肿瘤病灶^[1],考虑为第 3 种病理类型。

甲状腺 IMT 多为无痛性甲状腺肿块,有少许患者会有局部的压迫症状,如吞咽困难等^[1,5]。但是也有报道显示有类似恶性肿瘤的质硬肿块,甲状腺功能多正常。甲状腺 IMT 的 B 超表现多为低回声结节^[3,5],CT、MRI 等影像学检查有助于发现原发病灶、了解病变范围及预测病变性质,明确诊断仍需要病理学检查和免疫组织化学检测方法的辅助。外科手术切除是目前治疗 IMT 的首选手段,仅用糖皮质激素及左旋甲状腺素片治疗也能达到满意的结果^[7]。

尽管文献报道肺外等其他类型 IMT 有少量的复发及恶变率^[3,6],但目前报道的甲状腺 IMT 都是良性的,并且无一例复发及恶变。有学者认为 ALK-1 过表达与复发、侵袭密切相关^[8],但本例 ALK-1 阴性表达。也文献指出术后一段时间复查甲状腺球蛋白仍增高的患者复发的可能性较大,本例患者此指标较高,并且病理特征中明显可见瘤细胞向肌肉组织中浸润,因此本例患者虽然术后 4 个月未见复发,但尚需继续追踪和关注,以防复发。

参考文献

- [1] CREMONINI A, PONZONI M, BERETTA E, et al. Plasma cell granuloma of the thyroid gland: a challenging diagnostic problem[J]. *Int J Surg Pathol*, 2012, 20:500-506.
- [2] 何春燕, 朴颖实, 田澄, 等. 头颈部炎性肌纤维母细胞瘤及炎性假瘤的临床病理特点[J]. *临床与实验病理学杂志*, 2015, 31(12):1356-1360.
- [3] MARYLILLY S, SUBACHITRA T, RAMYA V, et al. Inflammatory myofibroblastic tumour of thyroid with its prominent spindle cell pattern: a rare case report[J]. *J Clin Diag Res*, 2016, 10:ED05-07.
- [4] KIM H J, NA J I, LEE J S, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the thyroid gland: a brief case report[J]. *Korean J Pathol*, 2014, 48:319-322.
- [5] TRIMECHE M, ZIADI S, MESTIRI S, et al. Inflammatory myofibroblastic tumor of the thyroid in its sclerosing subtype: the first case report[J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2009, 266:763-766.
- [6] BARBER W A, FERNANDO M, CHADWICK D R. Plasma cell granuloma of the thyroid: a conservative approach to a rare condition and review of the literature[J]. *J Thyroid Res*, 2010, 7:427-429.
- [7] 张红梅, 段微, 张静, 等. 甲状腺疾病血清甲状腺球蛋白检测的临床意义[J]. *山东医药*, 2014, 54(1):61-62.

(收稿日期:2016-12-27)