

- tive[J]. *Ultrastruct Pathol*, 2008, 32: 31–36.
- [5] SAKHARPE A, LAHAT G, GULAMHUSEIN T, et al. Epithelioid sarcoma and unclassified sarcoma with epithelioid features: clinicopathological variables, molecular markers, and a new experimental model [J]. *Oncologist*, 2011, 16: 512–522.
- [6] MAKIMOTO Y, YAMAMOTO S, TAKANO H, et al. Imaging findings of radiation-induced sarcoma of the head and neck[J]. *Br J Radiol*, 2007, 80: 790–797.
- [7] DE BREE R, VAN DER WAAL I, DE BREE E, et al. Management of adult soft tissue sarcomas of the head and neck[J]. *Oral Oncol*, 2010, 46: 786–790.
- [8] CVJETKO I, KOCMAN B, SITIC S. Inflammatory malignant fibrous histiocytoma of the retroperitoneum [J]. *Coll Antropol*, 2011, 35: 1–4.
- [9] 曹海光, 刘素香. 炎性肌纤维母细胞瘤[J]. *中国肿瘤临床杂志*, 2007, 34(13): 776–779.
- [10] DEVANEY K O, LAFEIR D J, TRIANTAFYLLOU A, et al. Inflammatory myofibroblastic tumors of the head and neck: evaluation of clinicopathologic and prognostic features [J]. *Eur Arch Otorhinolaryngol*, 2012, 269: 2461–2465.
- [11] 郭华, 熊焰, 农琳, 等. 33 例恶性纤维组织细胞瘤病理学重新诊断评估[J]. *北京大学学报(医学版)*, 2008, 40(4): 374–379.
- [12] ZAGARS G K, BALLO M T, PISTERS P W, et al. Prognostic factors for patients with localized soft-tissue sarcoma treated with conservation surgery and radiation therapy: an analysis of 1225 patients[J]. *Cancer*, 2003, 97: 2530–2543.
- [13] POTTER B O, STURGIS E M. Sarcomas of the head and neck[J]. *Surg Oncol Clin N Am*, 2003, 12: 379–417.
- [14] FAYDA M, AKSU G, YAMAN AGAOGLU F, et al. The role of surgery and radiotherapy in treatment of soft tissue sarcomas of the head and neck region: review of 30 cases[J]. *J Craniomaxillofac Surg*, 2009, 37: 42–48.
- [15] COLVILLE R J, CHARLTON F, KELLY C G, et al. Multidisciplinary management of head and neck sarcomas[J]. *Head Neck*, 2005, 27: 814–824.
- [16] CLARK M A, FISHER C, JUDSON I, et al. Soft-tissue sarcomas in adults[J]. *N Engl J Med*, 2005, 353: 701–711.
- [17] 刘艳丽, 刘良发, 黄德亮, 等. 头颈部炎性肌纤维母细胞瘤临床分析[J]. *中华耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2014, 49(1): 35–38.

(收稿日期: 2016-12-20)

颈动脉鞘异位甲状腺癌 2 例

王伟明¹ 孙晓磊¹ 张雷¹ 刘勇¹

[关键词] 甲状腺肿瘤; 颈动脉鞘

doi: 10.13201/j.issn.1001-1781.2017.15.017

[中图分类号] R736.1 [文献标志码] D

Two cases of carotid sheath ectopic thyroid carcinoma

Summary Ectopic thyroid tissue is resulting from developmental defects at early stages of thyroid gland embryogenesis. It can be found in many sites, including the tongue, pharynx, hyoid and throat. Ectopic thyroid tissue may also be involved in the same pathological processes as normal, or hotopic thyroid gland. These processes include tumors, inflammation and hyperplasia. They can cancerization, and the treatment of ectopic thyroid carcinoma is also controversial. The appearance of such tissue in rare locations may lead to diagnostic and therapeutic dilemmas.

Key words thyroid neoplasms; carotid sheath

1 病例报告

例 1 患者, 女, 44 岁, 因“发现右颈部包块 3 个月”于 2015 年 5 月 20 日入院。入院后专科查体: 右颈部胸锁乳突肌中段深面可扪及一大小约 3 cm×3 cm 质软包块, 边界清楚, 活动度尚可, 表面光滑, 无压痛, 局部表面皮温尚可, 双侧甲状腺未

扪及明显包块。入院后积极完善相关辅助检查, 包括血常规、生化全套、凝血检验、心电图及胸部平片均未见明显异常。右颈部包块穿刺细胞学检查, 抽出棕色液体 3 ml, 考虑为囊肿。甲状腺及颈部淋巴结 B 超提示: 右颈部极低回声团, 双侧甲状腺及峡部未见异常, 双侧颈部未见确切肿大淋巴结。术前初步诊断为右颈部淋巴管囊肿。患者于 2015 年 5 月 22 日在全身麻醉下行右颈部淋巴管囊肿切除术, 术后病检结果提示: 免疫组织化学支持右颈部

¹西南医科大学附属医院血管甲状腺外科(四川泸州, 646000)

通信作者: 刘勇, E-mail: lyong74@163.com

甲状腺乳头状癌(图 1)。经与患者及其家属沟通后,并定期随访,患者于 2016 年 7 月 25 日复查甲状腺彩超提示甲状腺双侧叶及峡部均未见异常。

例 2 男,33 岁,因“左颈部包块切除术后 20 d”于 2015 年 7 月 3 日入院。20 d 前,患者发现左颈部有一包块,约鸡蛋大小,不伴疼痛,无声嘶、呛咳,局部表面皮肤无溃疡形成及色素沉着,院外就诊考虑“颈部包块”,予以手术切除活检等对症治疗(具体治疗不详),术后病检(经我院会诊)结果提示:符合颈部淋巴结转移性甲状腺乳头状癌。患者为求进一步诊治,遂入我院,门诊以“甲状腺癌伴颈部淋巴结转移”收入我科。既往史无特殊。入院后专科体检:左颈部可见一长约 5 cm 手术切口愈合瘢痕,局部皮肤无发红,左颈部可扪及一大小约 5 cm×4 cm 质硬包块,边界不清,活动度欠佳,与周围组织粘连紧密,局部皮肤无溃疡形成及色素沉着,皮温不高,双侧甲状腺未扪及包块,余查体未见明显异常。辅助检查:甲状腺及颈部淋巴结 B 超示左颈部多发低回声团,肿大淋巴结需考虑周围组织肌层浸润,甲状腺双侧叶及峡部未见异常。甲状腺钨显像提示:甲状腺显像及全身钨显像未见明显异常。颈部 CT 平扫提示:双侧颈根部、胸锁乳突肌深面、双侧颈动脉鞘周围、颌下多发增大淋巴结,部分融合,考虑淋巴瘤可能,建议进一步检查。左颈部包块针吸细胞学结果提示:呈异物肉芽肿性炎改变。血常规、生化全套、甲功全套、凝血检验、胸部平片及心电图均未见明显异常。术前诊断为转移性甲状腺乳头状癌。患者于 2015 年 7 月 7 日在全身麻醉下行左颈部包块切除+淋巴结清扫术,术中冷冻结果提示:左颈部恶性肿瘤,考虑转移性低分化癌,待慢速及免疫组织化学进一步确定。术中与患者家属沟通,患者家属要求暂不行双侧甲状腺切除。术后病检结果提示:左颈部恶性肿瘤,免疫组织化学支持甲状腺滤泡型乳头状癌,脉管内血栓形成,请结合临床排除转移的可能,免疫组织化学结果:CK-H(-),TTF-1(+),CK19(+),Galectin-3(-),HBME-1(+),TG(+),Ki-67(+,20%),p53(+,90%),CD31(+),CT(Calcitonin)(-)(图 2)。左颈部淋巴结 23 枚,其中 2 枚可见甲状腺乳头状癌转移。在与患者及其家属进行充分沟通后,患者及家属均接受双侧甲状腺切除术。于 2015 年 7 月 15 日在全身麻醉下行双侧甲状腺全切术,术后行连续切片病检,送检双侧甲状腺未见癌残留。

2 讨论

甲状腺癌(thyroid carcinoma)是最常见的甲状腺恶性肿瘤,是来源于甲状腺上皮细胞的恶性肿瘤,绝大部分甲状腺癌起源于滤泡上皮细胞,按病理类型可分为乳头状癌、滤泡状癌、髓样癌及未分化癌。甲状腺癌最常见的类型是乳头状癌,其恶性

程度相对较低,预后良好,10 年生存率超过 90%。然而甲状腺乳头状癌的临床表现是多种多样的,可通过淋巴管扩散、复发、转移,甚至死亡^[1]。而异位甲状腺是一种极为少见的发育异常的甲状腺组织,其可出现在正常气管位置以外的其他任何部位,如咽部、舌内、舌骨上、舌骨下、喉前、胸骨上、气管内、食管内、胸骨后及胸腔内等处,偶见颈血管鞘的报道^[2],但 90% 的异位甲状腺被发现在舌部,其患病率为 1:100 000~1:300 000^[3-4]。甲状腺形态发生的机制尚未阐明,转录因子可能在甲状腺器官的发生发展中起着关键作用,如 TITF1/NKX2-1,其负责甲状腺特异性表达甲状腺球蛋白(Tg)和甲状腺过氧化物酶,以及 PAX8、HHEX 和 FOXE1。上述因子不仅在功能性甲状腺细胞中表达,而且在其前体中也有表达,并且对于甲状腺形态发生的早期阶段可能是至关重要的^[5]。

异位甲状腺癌是指异位甲状腺发生癌变,依其在正常位置有无正常甲状腺而分为两类:①迷走甲状腺癌,即固有部位无正常甲状腺而其他部位出现甲状腺且发生癌变;②副甲状腺癌,即固有部位存在甲状腺,其他部位也出现甲状腺组织且已经发生癌变^[6]。因而本文中的 2 例均属于副甲状腺癌,由于本病的发生率极低,且其症状及体征尚无特异性,因而术前误诊率极高,本文中例 1 患者术前误诊为右颈部淋巴管囊肿,经术后病理证实为甲状腺乳头状癌,故考虑存在异位甲状腺乳头状癌可能;虽然两者术前已被认为是甲状腺转移性甲状腺乳头状癌,但经双侧甲状腺切除术后,行连续切片未显示甲状腺病变的存在,所以要考虑诊断异位甲状腺滤泡乳头状癌。纵观目前国内外报道的异位甲状腺癌,其报道尚属单一病例,尚无大宗病例报道,笔者查阅国内外文献发现绝大多数异位甲状腺癌位于舌部,异位甲状腺组织更常发生于女性(男女比例 1:4),也可见于任何年龄,但更常见于 10~20 岁,约 75% 的患者中,舌甲状腺是唯一的功能性甲状腺组织。

异位甲状腺同正常甲状腺组织一样,可以发生各种病理改变,临床上大部分患者多以颈部无痛性肿块为主要表现,其鉴别诊断包括淋巴管畸形、涎腺肿瘤、中线鳃裂囊肿、表皮和皮脂腺囊肿、血管瘤、腺瘤、纤维瘤、脂肪瘤等。而对其术前明确诊断需借助于彩超、针吸细胞学、颈部 CT/MRI,甚至甲状腺核素扫描等检查,手术切除后的病理检查才是明确诊断的“金标准”^[7]。异位甲状腺组织治疗的选择取决于几个因素:患者病变的大小、局部症状、年龄、甲状腺的情况和存在的并发症,如溃疡、出血、囊性变或恶性。然而目前大量学者提倡,对异位甲状腺组织采取手术切除是最适合的治疗方案^[8]。虽然异位甲状腺组织中的癌非常罕见,但是

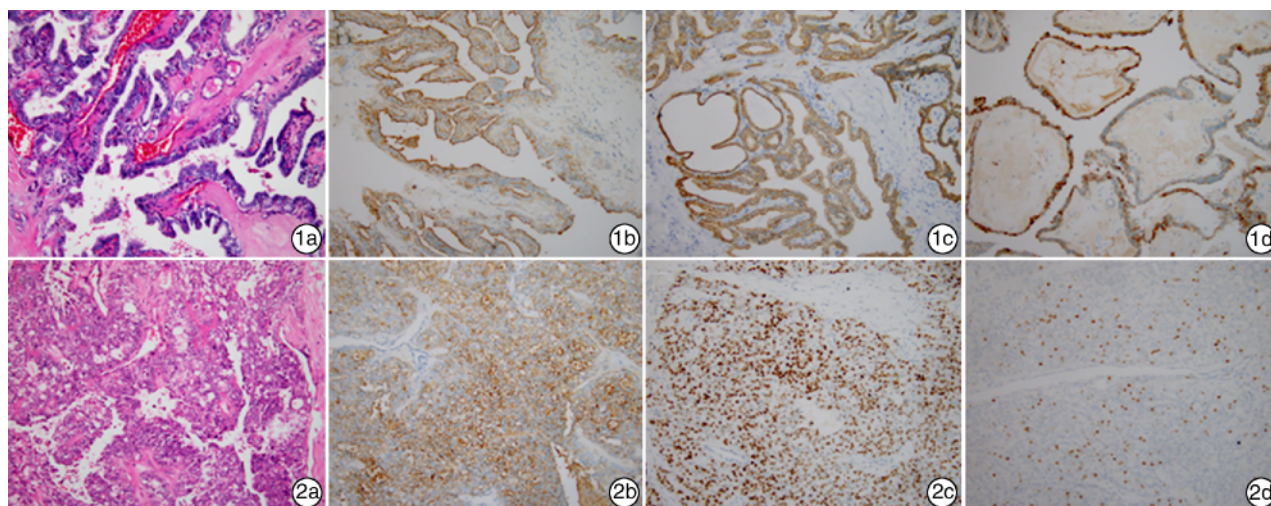


图 1 例 1 患者术后病理检查结果($\times 200$) 1a:苏木精-伊红染色;1b:HBME-1 免疫组织化学染色;CK19 免疫组织化学染色;1c:CK-H 免疫组织化学染色;图 2 例 2 患者术后病理检查($\times 200$) 2a:苏木精-伊红染色;2b:HBME-1 免疫组织化学染色;2c:p53 免疫组织化学染色;2d:Ki-67 免疫组织化学染色。

位于颈部正中线的肿块均应怀疑存在恶性肿瘤可能,并且术前针吸细胞学检查是必须的,以便计划适宜的手术方式,而手术范围和术后管理(包括放疗)均应由外科医生决定,异位甲状腺乳头状癌具有良好的分化,经适当的手术后,联合术后的放射性碘治疗在特定的情况下可以使疾病得到有效的治疗^[9-10]。

总之,异位甲状腺组织与正常位置的甲状腺一样均可以发生同样的病理变化。在前正中线上的肿块的患者应主要接受病史的筛查、体检和甲状腺功能检查,建议外科手术前对所有颈部区域进行仔细的超声评估检查以避免误诊;放射性核素甲状腺成像与碘扫描对确定异位甲状腺组织的位置及其性质至关重要,它还可以显示正常位置甲状腺组织的存在与否;针吸细胞学检查对于下颌下及颈部来说,有助于术前异位甲状腺的诊断^[4]。

异位甲状腺癌是一种极其罕见的疾病,它是建立在甲状腺发育异常的基础上进而癌变形成,异位甲状腺癌的诊断在临床上可能不容易,最重要的是需要外科医生了解并积极考虑这种疾病的可能性,即使在正常甲状腺存在的情况下,异位甲状腺癌也应该被考虑在位于颈部前部的病理肿块的鉴别诊断中,临床上在其好发部位出现的无痛性肿块,其鉴别诊断均需考虑异位甲状腺癌存在的可能,筛查方法首选 B 超和核素扫描,确诊的“金标准”为病理学活检。目前尚无统一的治疗方案,国内外均以手术治疗为主,术后予以加行局部放疗、化疗、生物治疗、内分泌治疗是提高手术生存率的必要手段^[11]。目前对肿瘤的生物学行为、手术切除范围、正常甲状腺组织的处理以及后期的治疗尚待进一步探讨。

参考文献

- [1] ZHU J, WANG X, ZHANG X, et al. Clinicopathological features of recurrent papillary thyroid cancer[J]. *Diagn Pathol*, 2015, 14: 96-96.
- [2] 陈超, 尹乐平, 冯超, 等. 异位甲状腺 13 例临床诊治分析[J]. *实用医院临床杂志*, 2016, 13(3): 45-48.
- [3] SIGUA-RODRIGUEZ E A, RANGEL GOULART D, ASPRINO L, et al. Conservative management for lingual thyroid ectopic[J]. *Case Rep Otolaryngol*, 2015, 2015: 265207.
- [4] SANTANGELO G, PELLINO G, DE FALCO N, et al. Prevalence, diagnosis and management of ectopic thyroid glands[J]. *Int J Surg*, 2016, 28 Suppl 1: S1-6.
- [5] YOON J S, WON K C, CHO I H, et al. Clinical characteristics of ectopic thyroid in Korea[J]. *Thyroid*, 2007, 17: 1117-1121.
- [6] 周振玉, 姜军. 异位甲状腺癌 9 例临床分析[J]. *中国临床研究*, 2012, 25(12): 1197-1198.
- [7] 周雅琪, 钱敏飞, 周争, 等. 原发性异位甲状腺癌 3 例并文献复习[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2014, 28(3): 151-153.
- [8] OOMEN K P, MODI V K, MADDALOZZO J. Thyroglossal duct cyst and ectopic thyroid: surgical management[J]. *Otolaryngol Clin North Am*, 2015, 48: 15-27.
- [9] LIANOS G, BALI C, TATSIS V, et al. Ectopic thyroid carcinoma. Case report[J]. *G Chir*, 2013, 34: 114-116.
- [10] TRIGGIANI V, GIAGULLI V A, LICCHELLI B, et al. Ectopic thyroid gland: description of a case and review of the literature[J]. *Endocr Metab Immune Disord Drug Targets*, 2013, 13: 275-281.
- [11] 文明波, 吴云阳, 陈佑江, 等. 异位甲状腺癌的诊断和治疗[J]. *中国普通外科杂志*, 2004, 13(11): 832-833.

(收稿日期: 2016-11-27)